

ARTIGO ORIGINAL

## Embolização percutânea de fístulas coronárias – Experiência de um centro

Margarida Silva\*, Nuno Carvalho, Ana Teixeira, Graça Nogueira, Isabel Menezes, Rui Ferreira, Fernando Maymone-Martins, Rui Anjos

Serviço de Cardiologia Pediátrica, Hospital de Santa Cruz, CHLO, Carnaxide, Portugal

Recebido a 10 de março de 2011; aceite a 28 de junho de 2011

Disponível na Internet a 22 de novembro de 2011

### PALAVRAS-CHAVE

Fístulas coronárias;  
Embolização;  
Intervenção  
percutânea

### Resumo

**Introdução:** Uma fístula coronária é uma conexão entre uma artéria coronária e uma cavidade cardíaca ou grande vaso. É um defeito raro e que geralmente ocorre de forma isolada. Apesar de a ecocardiografia bidimensional ter um papel importante no diagnóstico, a angiotomografia computadorizada ou a angiografia coronária são importantes para a delimitação da anatomia. A cirurgia é o tratamento tradicional, mas o encerramento percutâneo é atualmente o método recomendado, com excelentes resultados e baixa morbidade em grupos com experiência em embolização terapêutica.

**População e métodos:** Descrevemos a experiência do nosso centro no tratamento percutâneo de 15 fístulas coronárias em 12 doentes entre 1996 e 2011. Oito (67%) eram do sexo masculino. A idade mediana foi de 25 anos. Os motivos de referência mais frequentes foram sopro e/ou cansaço. Todas as fístulas eram de origem congénita. Cinco doentes (42%) tinham patologia cardíaca concomitante: atresia da pulmonar com septo interventricular intacto (1), canal arterial persistente (1), comunicação interauricular *ostium secundum* (1), estenose aórtica em válvula aórtica bicuspidé (1), estenose pulmonar crítica operada no período neonatal (1). Três doentes tinham duas fístulas coronárias e nos restantes a lesão era única. As fístulas eram hemodinamicamente significativas, com origem no território da coronária direita (n=10), da coronária esquerda (n=3) e da circunflexa (n=2) e drenavam para o ventrículo direito (n=5), artéria pulmonar (n=6), aurícula direita (n=2), seio coronário (n=1) e ventrículo esquerdo (n=1). O material de embolização incluiu *coils standard*, *coils* de libertação controlada, *microcoils* (simples, GDC ou IDC) e um dispositivo Amplatzer® Duct Occluder.

**Resultados:** A embolização da fístula foi obtida em todos os doentes. Não houve mortalidade. Ocorreu enfarte do ventrículo direito num doente com fístula de grandes dimensões e coronária direita de diâmetro muito reduzido distalmente à emergência da fístula. Em três casos ocorreram complicações *minor*: embolização inadvertida de *coil*, recuperado no mesmo procedimento (1), arritmia transitória (1) e pseudo-aneurisma femoral (1).

\* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: [margaridaoms@gmail.com](mailto:margaridaoms@gmail.com) (M. Silva).

**KEYWORDS**

Coronary fistulas;  
Embolization;  
Percutaneous  
intervention

Num seguimento médio de 4,9 anos (um mês a 14 anos) não se registaram intercorrências relacionadas com o procedimento. O controlo por ecocardiograma e/ou angiografia coronária mostrou que em dez doentes ocorreu oclusão eficaz e permanente das fístulas, enquanto que dois doentes mantiveram fluxo residual mínimo, por pequenos vasos acessórios, sem repercussão hemodinâmica.

**Conclusão:** As embolizações terapêuticas representam uma forma eficaz de abordagem de fístulas coronárias seleccionadas. Estas anomalias têm características muito variáveis, pelo que é necessário dispor de um grande leque de dispositivos para seleccionar a opção mais eficaz.

© 2011 Sociedade Portuguesa de Cardiologia. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos os direitos reservados.

---

**Percutaneous embolization of coronary fistulas: a single-center experience**
**Abstract**

**Introduction:** A coronary fistula is a connection between one of the coronary arteries and a cardiac chamber or great artery. It is a rare defect and usually occurs in isolation. Two-dimensional echocardiography has an important role in diagnosis but coronary or CT angiography is essential to delineate the anatomy. Surgery is the traditional therapeutic approach but percutaneous closure is now the recommended method, with excellent results and few complications in experienced centers.

**Methods:** We describe our experience with percutaneous treatment of 15 coronary fistulas in 12 patients between 1996 and 2011. Eight (67%) were male and median age was 25 years. The most frequent symptoms were murmur and/or fatigue. All fistulas were congenital. Five patients (42%) had concomitant cardiac disease: pulmonary atresia with intact ventricular septum (1), patent ductus arteriosus (1), ostium secundum atrial septal defect (1), stenotic bicuspid aortic valve (1), and critical pulmonary stenosis operated in the neonatal period (1). Three patients had two fistulas, while the others had a single lesion. All fistulas were hemodynamically significant. They originated in the territory of the right coronary (10), left coronary (3) and circumflex (2), draining into the right ventricle (5), pulmonary artery (6), right atrium (2) coronary sinus (1) and left ventricle (1). Embolization materials included standard coils, controlled-release coils, microcoils (standard, GDC or IDC) and an Amplatzer® duct occluder.

**Results:** Embolization was achieved in all patients. There was no mortality. One patient with a large fistula and a very small right coronary artery distally to the origin of the fistula had a right ventricular infarction. In three patients there were minor complications: inadvertent coil embolization, recovered in the same procedure (1), transient arrhythmia (1) and femoral pseudo-aneurysm (1). In a mean follow-up of 4.9 years (one month to 14 years), there were no procedure-related complications. Echocardiographic and/or angiographic control showed complete and permanent occlusion in ten patients and minimal residual flow in two patients through small collaterals with no hemodynamic significance.

**Conclusion:** Percutaneous embolization represents an effective form of treatment for selected coronary fistulas. A wide range of embolization devices must be available to ensure the best therapeutic approach.

© 2011 Sociedade Portuguesa de Cardiologia. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

---

**Introdução**

Uma fístula coronária é uma conexão entre uma artéria coronária e uma cavidade cardíaca ou grande vaso<sup>1-4</sup>. É um defeito raro e que geralmente ocorre de forma isolada, mas constitui a mais frequente anomalia congénita coronária hemodinamicamente significativa<sup>5</sup>. A incidência exacta é desconhecida, mas estima-se que seja de cerca de 0,3 a 0,8%, como evidenciado em cateterismos cardíacos de diagnóstico.<sup>1,6</sup> A maior parte das fístulas coronárias é de origem congénita, mas pode ocorrer após cirurgia cardíaca ou trauma<sup>4,10</sup>. Habitualmente não cursam com sintomas nas primeiras décadas de vida, sobretudo se pequenas<sup>4</sup>. A partir dessa altura, a frequência de sintomas

e complicações aumenta. Possíveis complicações incluem «roubo'» ao miocárdio adjacente, trombose, embolismo, insuficiência cardíaca, fibrilhação auricular, endocardite/endarterite, ruptura e arritmias<sup>1,2</sup>. O diagnóstico diferencial principal é a persistência do canal arterial e fístulas arteriovenosas<sup>7</sup>.

Apesar de a ecocardiografia bidimensional e o Doppler codificado a cores terem um papel importante no diagnóstico de fístula coronária, a angiografia coronária ou a tomografia computadorizada cardíaca são essenciais para a delimitação da anatomia. A cirurgia é o tratamento tradicional, mas o encerramento percutâneo é uma alternativa com bons resultados e poucas complicações em grupos com experiência em embolização terapêutica<sup>4</sup>. O encerramento

**Tabela 1** Características demográficas da população.

N	Sexo	Fístulas	Idade	Comorbilidades
1	M	1	64	EAM
2	F	1	53	-
3	F	1	13	-
4	M	2	61	Padrão Brugada
5	M	2	11	PCA
6	M	1	74	Est A, v. bicúspide
7	M	1	14	Est pulm crítica
8	F	1	7	Atr AP SIV intacto
9	F	1	1	CIA
10	M	2	55	-
11	M	1	8	-
12	M	1	39	-

Atr AP SIV intacto: atresia da válvula pulmonar com septo interventricular intacto; CIA: comunicação interauricular; EAM: enfarte agudo do miocárdio; Est A: estenose aórtica; Est pulm: estenose pulmonar; PCA: canal arterial persistente; v. bicúspide: válvula aórtica bicúspide

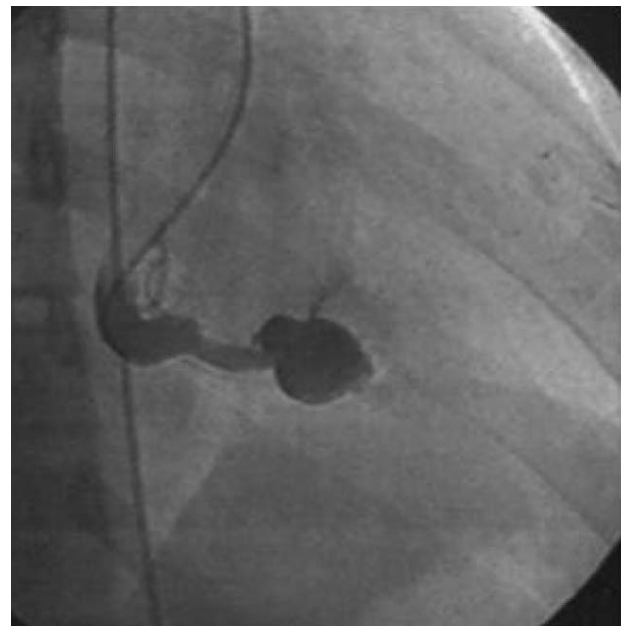
da fístula deve ser feito sempre que esta seja hemodinamicamente significativa<sup>4,8</sup>.

Descrevemos a experiência do nosso centro no encerramento percutâneo de fístulas coronárias entre 1996 e 2011.

## População e métodos

Descrevemos a experiência do nosso centro no tratamento percutâneo de 15 fístulas coronárias em 12 doentes entre 1996 e 2011. Oito (67%) eram do sexo masculino. A idade mediana foi 25 anos (Tabela 1).

Os motivos de referência mais frequentes foram sopro e/ou cansaço. Todas as fístulas eram de origem congénita. Cinco doentes (42%) tinham patologia cardíaca concomitante: atresia da pulmonar com septo interventricular intacto (1), canal arterial persistente (1), comunicação interauricular *ostium secundum* (1), estenose aórtica em válvula aórtica bicúspide (1), estenose pulmonar crítica operada no período neonatal (1). Foram realizadas angiografias selectivas para delinear a anatomia da(s) fístula(s). A embolização foi feita na porção mais distal da fístula, poupando todos os ramos colaterais. Num doente foi realizada uma anastomose arteriovenosa através da fístula, com embolização da porção terminal da fístula a partir da aurícula direita. Os doentes foram heparinizados (100 U.I./kg na criança e 5000 U.I. no adulto) e foi feito o controlo posterior através do valor de ACT. Três dos doentes apresentavam duas fístulas e os restantes comunicações fistulosas isoladas. As fístulas eram todas hemodinamicamente significativas e tinham origem no território da coronária direita (n=10), da coronária esquerda (n=3) e da circunflexa (n=2) e drenavam para o ventrículo direito (n=5), artéria pulmonar (n=6), aurícula direita (n=2), seio coronário (n=1) e ventrículo esquerdo (n=1). O material de embolização incluiu 15 *coils standard* em 3 doentes, 1 *coil Jackson*® num doente (Figuras 1–3), 27 *microcoils* em 11 doentes (18 *microcoils* simples em 7 doentes e 9 *microcoils* GDC em 4 doentes) e um dispositivo Amplatzer® *Duct Occluder* num doente (Figuras 4–7). Merece um destaque especial os *microcoils* GDC, simples ou complexos, que são dispositivos de libertação controlada

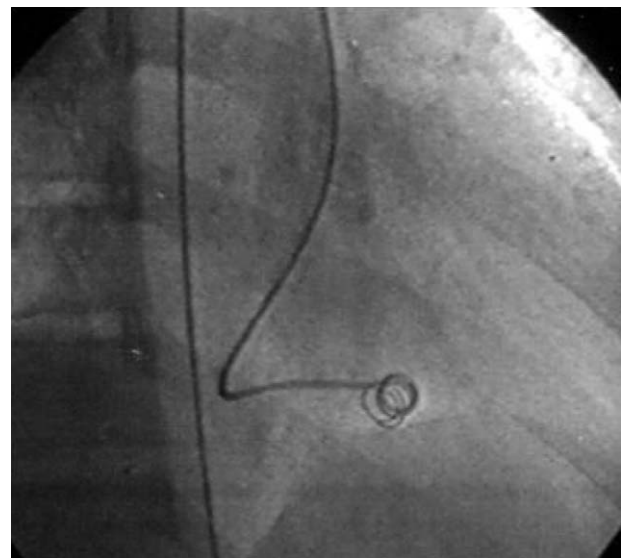


**Figura 1** Angiografia selectiva de fístula coronária para o VD.

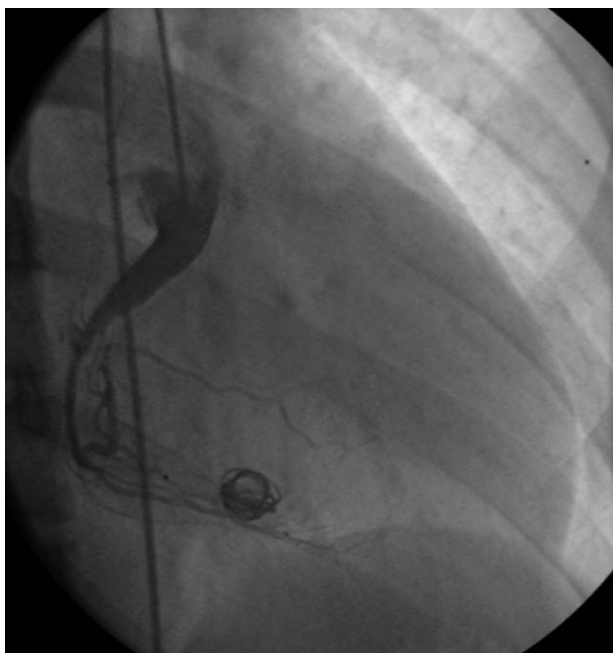
por electrólise, o que permite que o procedimento seja reversível até à fase final da libertação, após se confirmar a boa posição do dispositivo. Num doente foi testado um *plug* cardíaco Amplatzer® que não foi libertado por não ser adequado à lesão.

## Resultados

A embolização da fístula foi obtida em todos os doentes. Não houve mortalidade. Ocorreu enfarte do ventrículo direito num doente com fístula de grandes dimensões e coronária direita de diâmetro muito reduzido



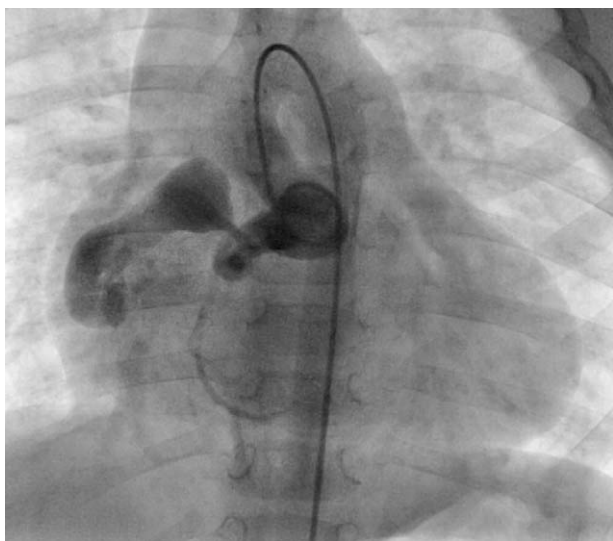
**Figura 2** Encerramento de fístula coronária com um *coil Jackson* controlada e três espirais *standard*.



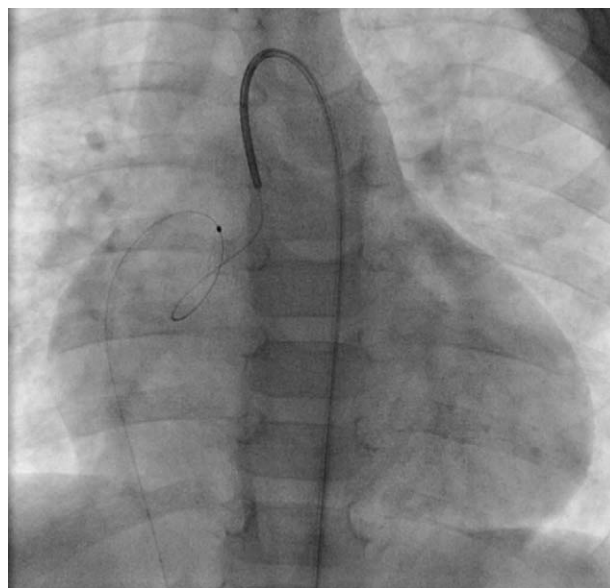
**Figura 3** A angiografia final mostra oclusão total da fístula. Note-se a melhor perfusão do miocárdio após embolização da fístula.

distalmente à emergência da fístula. Em três casos ocorreram complicações *minor*: embolização inadvertida de *coil*, recuperado no mesmo procedimento (1), arritmia transitória (1) e pseudo-aneurisma femoral (1).

Num seguimento médio de 4,9 anos (um mês a 14 anos) não se registaram intercorrências relacionadas com o procedimento. O controlo por ecocardiograma e/ou angiografia coronária mostrou que em dez doentes ocorreu oclusão eficaz e permanente das fístulas, enquanto que dois doentes mantiveram fluxo residual mínimo, por pequenos vasos acessórios, sem repercussão hemodinâmica.



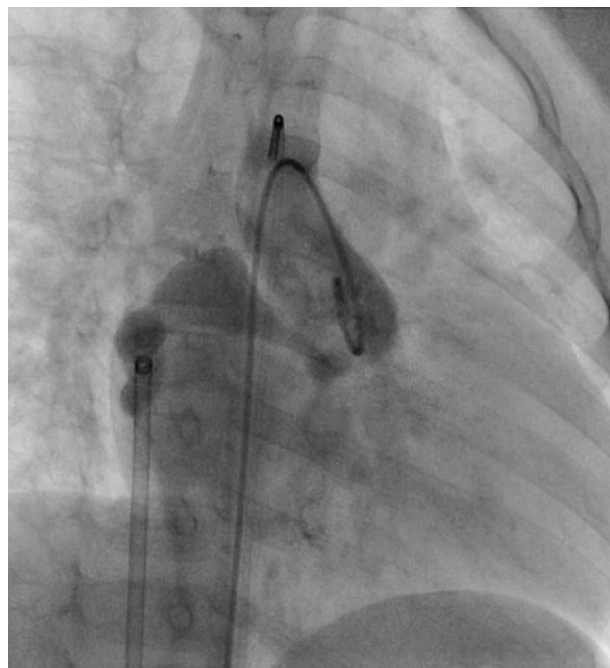
**Figura 4** Fístula coronária de grandes dimensões com origem na coronária direita e drenagem na aurícula direita.



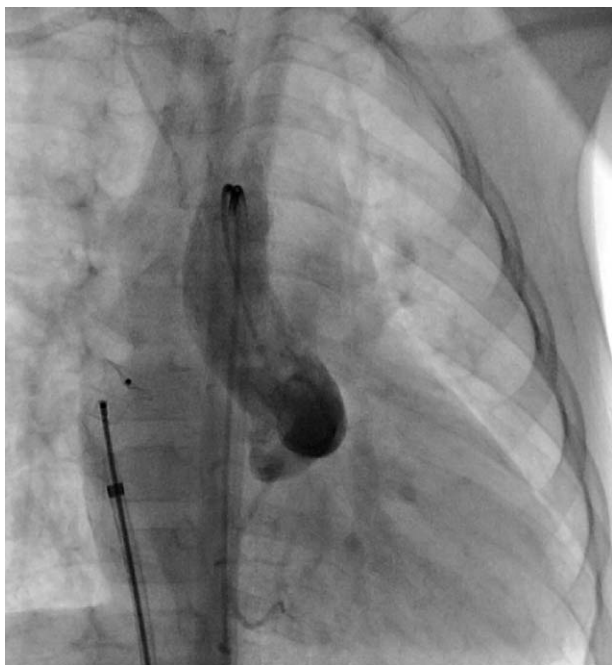
**Figura 5** Formação de laçada arteriovenosa através da fístula coronária.

## Discussão

O encerramento percutâneo de fístulas coronárias é um dos procedimentos percutâneos de intervenção mais complexos, tendo como potenciais riscos a embolização de ramos normais das coronárias, a migração de dispositivos para as cavidades cardíacas ou grandes vasos e a lesão da própria fístula com ruptura. Uma avaliação cuidadosa das características morfológicas e do trajecto da fístula é necessário para decidir o local mais correcto para a embolização e o



**Figura 6** Após realizada a laçada arteriovenosa através da fístula, o encerramento é feito por via venosa, implantando o dispositivo na aurícula direita.



**Figura 7** A injeção final após encerramento da fístula com dispositivo Amplatzer® *Duct Occluder* na aurícula direita mostra que não há fluxo residual.

dispositivo mais adequado a utilizar. Actualmente, a tomografia computadorizada com angiografia dirigida às coronárias tem a capacidade de delinear com precisão o trajecto e as comunicações das fístulas coronárias, podendo ser um instrumento muito útil na avaliação diagnóstica e no planeamento da melhor estratégia para o encerramento da mesmas<sup>9,10</sup>.

A abordagem clássica da fístula coronária é o encerramento cirúrgico. Em 1997, Mavroudis et al apresentou uma análise sobre resultados cirúrgicos de encerramento de fístulas coronárias em 17 doentes com idades compreendidas entre as seis semanas e os 16,5 anos (idade média 5,5 anos) e tratados entre 1968 e 1996, concluindo que o encerramento cirúrgico de fístulas coronárias foi 100% eficaz e sem mortalidade naquela série, pelo que deve ser o tratamento de eleição nestas situações, devendo o encerramento percutâneo ficar reservado para apenas uma pequena população seleccionada<sup>11</sup>. Contudo, já em 1991, tinha sido descrito o encerramento percutâneo de sete fístulas coronárias em doentes com idades compreendidas entre os dois e os 67 anos (idade média de 17 anos), que decorreu com sucesso em seis das sete fístulas encerradas e sem complicações durante um tempo de seguimento de quatro meses a quatro anos<sup>12</sup>. Neste artigo, os autores chamam a atenção para a vantagem do encerramento percutâneo com a possibilidade de se evidenciarem fístulas adicionais após o encerramento da(s) fístula(s) de maiores dimensões apenas visível(is) no encerramento percutâneo. Apesar de tecnicamente mais difícil, fístulas de grandes dimensões a drenarem para a aurícula direita ou para o ventrículo direito podem ser encerradas por via venosa com dispositivos como Amplatzer® *Duct Occluder* ou *plugs*, com monitorização do posicionamento adequado do dispositivo através de injeções selectivas retrógradas na

artéria coronária, como descrito em 2000 por Pedra et al<sup>5</sup> e realizado no nosso caso 9 (Fig. 1 a 4).

Armsby et al. descrevem o encerramento percutâneo de 35 fístulas em doentes com idades compreendidas entre oito meses e 68 anos (média oito anos) e *follow-up* de 2,8 anos; o encerramento foi possível em apenas 33 casos (85%) e foi eficaz em 27 casos (82%), não tendo havido mortalidade. Este estudo mostra resultados semelhantes aos do encerramento cirúrgico de fístulas coronárias, em relação à eficácia, morbidade e mortalidade<sup>7</sup>. Numa segunda série apresentada também em 2002, Alekyan et al. descreveram o encerramento percutâneo de 15 fístulas coronárias em doentes com idades compreendidas entre 11 meses e 44 anos (média de sete anos) e *follow-up* entre seis meses a 13 anos; o encerramento foi eficaz em 13 doentes e houve um óbito numa criança de quatro anos de idade por insuficiência renal após trombose da artéria femoral<sup>13</sup>. Em 2007, Collins et al. descreveram o encerramento percutâneo de 14 fístulas em doentes adultos, com um *follow-up* de 2,6 anos e que foi eficaz em 11 doentes, sem que se tenha verificado mortalidade<sup>14</sup>. Os autores concluem tratar-se de um procedimento seguro e eficaz no tratamento de fístulas sintomáticas em adultos<sup>14</sup>. Merece referência especial a complicação mais importante ocorrida na nossa série: enfarte do ventrículo direito. Neste doente, uma coronária direita proximal muito dilatada, com cerca de 1 cm de diâmetro, continuava-se por uma fístula de grandes dimensões. Após a emergência da fístula, a coronária distal era extremamente reduzida. Depois da embolização, o fluxo na coronária direita proximal passou a ser extremamente lento. O fluxo lento numa artéria de dimensões muito aumentadas pode ser um factor de risco, com progressão proximal de trombos a partir da fístula embolizada, pelo que estes doentes devem ser anticoagulados de forma eficaz.

Mais recentemente, dois casos de fístulas coronárias encerradas por via anterógrada com dispositivos Amplatzer® *Vascular Plug* em crianças com um ano e quatro anos de vida, foram descritos com sucesso e sem mortalidade<sup>15</sup>. Finalmente, em 2010, Bruckheimer et al. descreveram uma série de 10 doentes com idades compreendidas entre 0,5 a 52,2 anos (média 2,6 anos) e *follow-up* médio de 1,7 anos; todas as fístulas eram de grande dimensões e foram encerradas com dispositivos Amplatzer® *Duct Occluder* e *Vascular Plug*, com sucesso em nove dos 10 doentes, sem mortalidade e sem complicações significativas<sup>16</sup>. Contudo, apesar destes estudos, não existe ainda um estudo multicêntrico sobre esta modalidade terapêutica.

Em conclusão, apesar da complexidade desta modalidade terapêutica e da raridade da patologia, as embolizações terapêuticas representam uma forma eficaz de abordagem de fístulas coronárias seleccionadas em centros especializados.

Em Portugal, a nossa é a primeira série descrita sobre encerramento percutâneo de fístulas coronárias hemodinamicamente significativas, incluindo fístulas de grandes dimensões, uma delas encerradas com dispositivo Amplatzer® *Duct Occluder*, e sete fístulas coronárias encerradas em idade pediátrica (com idades compreendidas entre um ano e 14 anos). Não houve mortalidade e não ocorreram complicações significativas, excepto enfarte num doente com uma fístula de grandes dimensões e artéria coronária

muito pequena distalmente à fistula. Globalmente, o encerramento percutâneo de fístulas coronárias mostrou ser um procedimento seguro e eficaz em doentes seleccionados, mesmo em idade pediátrica.

### Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

### Bibliografia

1. Wilde P, Watt I. Congenital coronary artery fistulae: six new cases with a collective review. *Clin Radiol.* 1980;31:301–11.
2. McNamara JJ, Gross RE. Congenital coronary artery fistula. *Surgery.* 1969;65:59–69.
3. Levin DC, Fellows KE, Abrams HL. Hemodynamically significant primary anomalies of the coronary arteries. *Circulation.* 1978;58:25–34.
4. Qureshi SA. Coronary arterial fistulas. *Orphanet J Rare Dis.* 2006;1(Dec):51.
5. Pedra C, Pihkala J, Nykanen D, et al. Antegrade transcatheter closure of coronary artery fistulae using vascular occlusion devices. *Heart.* 2000;83:94–6.
6. Gowda RM, Vasvada BC, Khan IA. Coronary artery fistulas: clinical and therapeutic considerations. *Int J Cardiol.* 2006;107(Feb):7–10.
7. Armsby L, Keane J, Sherwood M, et al. Management of coronary artery fistulae: Patient selection and results of transcatheter closure. *J Am Coll Cardiol.* 2002;39:1026–32.
8. Bauer M, Bauer U, Alexi-Meskishvili V, et al. Congenital coronary fistulas: the most frequent congenital coronary anomaly. *Z Kardiol.* 2001;90(Aug):535–41.
9. Early SA, Meany TB, Fenlon HM, et al. Coronary artery fistula; coronary computed topography-the diagnostic modality of choice. *J Cardiothorac Surg.* 2008;3(Jul):41.
10. Manghat NE, Kakani N, Morgan-Hughes GJ. 64-slice cardiac computed tomography: appearance of a complex coronary to pulmonary arterial fistula with conus artery aneurysm. *Heart.* 2006;92(Sep):1308.
11. Mavroudis C, Backer CL, Rocchini AP, et al. Coronary artery fistulas in infants and children: a surgical review and discussion of coil embolization. *Ann Thorac Surg.* 1997 May;63:1235–42.
12. Reidy JF, Anjos RT, Qureshi SA, et al. Transcatheter embolization in the treatment of coronary artery fistulas. *J Am Coll Cardiol.* 1991;18(Jul):187–92.
13. Alekyan B, Podzolkov P, Cárdenas C. Transcatheter Coil Embolization of Coronary Artery Fistula. *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2002;10:47–52.
14. Collins N, Mehta R, Benson L, et al. Percutaneous Coronary Artery Fistula Closure in Adults: Technical and Procedural Aspects. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2007;69:872–80.
15. Liang C, Ko S, Lin Y, et al. Transcatheter Closure of a Left Circumflex Coronary Artery Fistula in Two Children Using the Amplatzer Vascular Plug. *Pediatr Cardiol.* 2009;30:1172–5.
16. Bruckheimer E, Harris M, Kornowski R, et al. Transcatheter Closure of Large Congenital Coronary-Cameral Fistulae with Amplatzer Devices. *Catheter Cardiovasc Interv.* 2010;75:850–4.