



CASO CLÍNICO

Um caso raro de dois mecanismos de disfunção protésica no mesmo doente



Gonçalo Cardoso^{a,*} Marisa Trabulo^a Maria João Andrade^a Regina Ribeiras^a
Rui Rodrigues^b José Pedro Neves^b João Queiróz e Melo^b Miguel Mendes^b

^a Serviço de Cardiologia, Hospital de Santa Cruz – Centro Hospitalar Lisboa Ocidental, Carnaxide, Portugal

^b Serviço de Cirurgia Cardiorádica, Hospital de Santa Cruz – Centro Hospitalar Lisboa Ocidental, Carnaxide, Portugal

Recebido a 16 de fevereiro de 2013; aceite a 25 de junho de 2013

Disponível na Internet a 23 de novembro de 2013

PALAVRAS-CHAVE

Disfunção de prótese valvular mecânica;
Pannus;
Disfunção protésica intermitente

Resumo Em doentes portadores de próteses valvulares mecânicas, a ocorrência de disfunção protésica constitui um evento clínico relevante. Ocasionalmente, a demonstração do seu mecanismo etiológico e gravidade podem revelar-se difíceis.

Apresenta-se o caso clínico de um doente de 50 anos, portador de duas próteses valvulares mecânicas nas posições aórtica e mitral, internado por descompensação de insuficiência cardíaca. Nos antecedentes apresentava uma história longa de doença plurivalvular reumática com três cirurgias cardíacas prévias.

No internamento a investigação conduziu ao diagnóstico de disfunção grave de ambas as próteses mecânicas, sendo a etiologia e o mecanismo diferente em cada caso: recidiva de *pannus* no caso da prótese aórtica e bloqueio intermitente do encerramento dos discos por interposição de uma corda rota do aparelho subvalvular, no caso da prótese mitral. O doente foi reoperado, tendo havido melhoria significativa da classe funcional.

© 2013 Sociedade Portuguesa de Cardiologia. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos os direitos reservados.

KEYWORDS

Mitral and aortic prosthesis;
Pannus;
Chordae tendineae

A rare case of two mechanisms of prosthetic valve dysfunction in the same patient

Abstract Prosthetic valve dysfunction is a significant clinical event. Determining its etiological mechanism and severity can be difficult. The authors present the case of a 50-year-old man, with two mechanical valve prostheses in aortic and mitral positions, hospitalized for decompensated heart failure. He had a long history of rheumatic multivalvular disease and had undergone three heart surgeries. On admission, investigation led to a diagnosis of severe dysfunction of both mechanical prostheses with different etiologies and mechanisms: pannus formation in the prosthetic aortic valve and intermittent dysfunction of the mitral prosthesis due to interference of a ruptured chorda tendinea in closure of the disks. The patient was reoperated, leading to significant improvement in functional class.

© 2013 Sociedade Portuguesa de Cardiologia. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: goncalocardoso@gmail.com (G. Cardoso).

Introdução

O aperfeiçoamento progressivo do desenho e do perfil hemodinâmico das próteses valvulares tem vindo a traduzir-se numa redução da ocorrência de disfunção protésica¹. No entanto, todas as próteses valvulares continuam sujeitas à ocorrência de complicações² e disfunção de gravidade variável, devendo esta possibilidade ser considerada na avaliação clínica individualizada da relação risco/benefício em doentes candidatos a substituição valvular³.

A disfunção obstrutiva de próteses valvulares mecânicas pode dever-se a trombose da prótese, desenvolvimento de *pannus* ou a uma associação das duas entidades⁴.

A trombose ocorre habitualmente associada a níveis subterapêuticos de anticoagulação⁵ e manifesta-se de uma forma rápida e potencialmente fatal⁶. Existem, porém, casos descritos com evolução mais insidiosa, nos quais o diagnóstico diferencial com a presença de *pannus* tem de ser considerado. Esta distinção é da maior importância pois a única alternativa terapêutica em caso de *pannus* hemodinamicamente significativo é a cirurgia (substituição da prótese ou excisão do tecido anómalo, em casos selecionados)⁷, nos casos de trombose de prótese a terapêutica trombolítica pode ser equacionada^{8,9}.

O *pannus* consiste no desenvolvimento de tecido fibrovascular e/ou de granulação intraprotésico, podendo condicionar obstrução protésica muito significativa^{2,10}. O seu diagnóstico é difícil não só pela evolução habitualmente lenta e insidiosa, mas sobretudo porque os meios complementares de diagnóstico atualmente existentes, nomeadamente o ecocardiograma, apesar da documentação de gradientes transprotésicos elevados, não permitem a visualização adequada do tecido excessivo anómalo¹¹.

As próteses valvulares estão também sujeitas à ocorrência de regurgitação patológica. No caso das próteses mecânicas, esta ocorre habitualmente no contexto de endocardite ou de problemas técnicos na ocasião da implantação.

Descreve-se em seguida o caso clínico de um doente com obstrução recidivante de prótese aórtica mecânica por *pannus*, associada a disfunção intermitente de prótese mitral mecânica por interposição de corda do tecido subvalvular nativo residual entre os discos protésicos, impedindo o seu encerramento.

Caso clínico

Doente do sexo masculino, 50 anos de idade, com antecedentes de febre reumática aos 22 anos de idade e três cirurgias cardíacas valvulares prévias. Foi internado em março de 2010 num serviço de cardiologia por descompensação de insuficiência cardíaca (IC).

Em 1991, na sequência de episódio inaugural de fibrilhação auricular (FA), foi-lhe diagnosticada doença valvular reumática com envolvimento das válvulas aórtica e mitral (ambas com predomínio de regurgitação), dilatação e disfunção ventricular esquerda (VE) moderadas. Nessa ocasião foi submetido à primeira cirurgia cardíaca, tendo sido substituída a válvula aórtica por prótese mecânica Duromedics 23 e realizada reparação valvular mitral com anel de Carpentier-Edwards (CE). O ecocardiograma efetuado ao 7.º dia pós-operatório revelava prótese aórtica com

gradiente máximo de 23 mmHg, sem regurgitação aparente. A válvula mitral apresentava regurgitação trivial e área por planimetria normal. Persistiam a dilatação VE (diâmetro diastólico [DD] VE de 69 mm) e a disfunção sistólica moderada do VE. Após um período de dois anos em que se manteve assintomático e com níveis de anticoagulação predominantemente em valores terapêuticos, inicia queixas de IC com agravamento rapidamente progressivo, ficando em classe funcional NYHA III. Um ecocardiograma revelou aumento significativo dos gradientes transprotésicos aórticos (máximo e médio de respetivamente 90 e 57 mmHg). A válvula mitral mantinha bom resultado da plastia prévia, com regurgitação *minor*. O VE continuava dilatado (DD e DS de respetivamente 67 e 53 mm), mantendo disfunção sistólica moderada. A avaliação fluoroscópica confirmou a disfunção da prótese evidenciando restrição da mobilidade dos oclusores protésicos.

Foi então reoperado para substituição protésica, tendo o diagnóstico de obstrução por *pannus* sido confirmado através de inspeção direta intraoperatória. Após remoção da prótese e excisão do *pannus*, implantou-se nova prótese aórtica St. Jude 23. O ecocardiograma ao 5.º dia pós-operatório revelou gradiente máximo da prótese aórtica de 29 mmHg.

Após a 2.ª cirurgia cardíaca houve recuperação funcional significativa, tendo-se mantido assintomático durante dez anos. A partir de 2003 assiste-se ao reaparecimento das queixas de IC com agravamento progressivo até 2007. Nesta altura o ecocardiograma revelou agravamento da doença valvular mitral (estenose com área do orifício valvular por planimetria de 1,1 cm² associada a regurgitação grave, excêntrica, por acentuada hipomobilidade do folheto posterior) e regurgitação tricúspide (RT) grave com pressão sistólica na artéria pulmonar (PSAP) estimada de 45 mmHg. A prótese aórtica apresentava gradientes máximo e médio de 41 e 27 mmHg, respetivamente. Registava-se também agravamento da disfunção VE, com fração de ejeção de 35%.

Em maio de 2007 foi realizada a 3.ª cirurgia cardíaca, onde se confirmaram os achados ecocardiográficos da válvula mitral. Foi efetuada também inspeção intraoperatória da prótese aórtica que não revelou alterações macroscópicas significativas. Removeu-se o folheto anterior da válvula mitral e suturou-se o folheto posterior, juntamente com as cordas tendinosas, após ter sido enrolado, à região posterior do anel preservando assim o aparelho subvalvular mitral. Implantou-se uma prótese mecânica St. Jude em posição mitral e realizada anuloplastia tricúspide com anel de CE n.º 34.

Teve alta em classe NYHA II. Progressivamente, até março de 2010, agravou-se a classe funcional da IC. Em ecocardiogramas seriados observou-se um aumento progressivo dos gradientes da prótese aórtica implantada em 1993. Foi internado no nosso serviço por descompensação de IC com classe funcional NYHA IV. À entrada apresentava-se apirético e à auscultação apresentava ruídos metálicos protésicos e um sopro sistólico de intensidade variável em todo o precórdio. Analiticamente não tinha parâmetros inflamatórios aumentados e o INR era de 2,8. O eletrocardiograma mostrou FA (conhecida desde 1991), hipertrofia do VE e alterações difusas e inespecíficas da repolarização ventricular. No ecocardiograma transtorácico (ETT), em que era difícil a visualização dos discos protésicos aórticos, obtiveram-se parâmetros Doppler compatíveis com

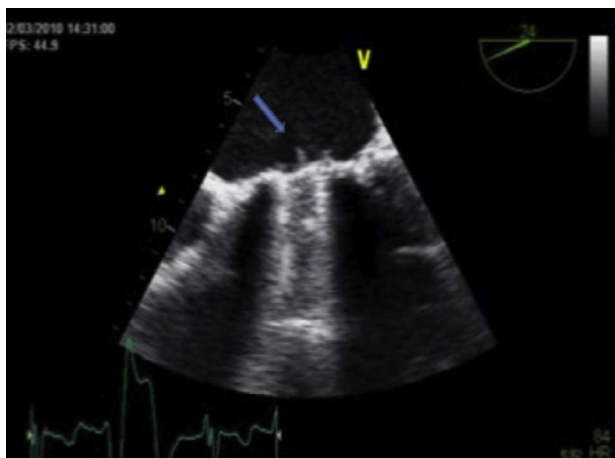


Figura 1 ETE: imagem filamentosa móvel que atravessa a prótese em direção à aurícula esquerda.

obstrução da prótese aórtica. Apesar da variação com a duração do ciclo cardíaco, os gradientes eram superiores aos de exames anteriores, (máximo e médio de respetivamente 70 e 40 mmHg), com o quociente VTI do trato de saída do VE/VTI aórtico de 0,14. Aparentemente apenas à face ventricular do anel protésico mitral, era visível uma estrutura filamentosa muito móvel que não parecia interferir com o funcionamento da prótese. Os gradientes transpróticos mitrais não estavam significativamente aumentados (máximo e médio de respetivamente 12 e 4 mmHg). Por ETT não foi possível visualizar regurgitação protésica mitral devido às reverberações protésicas na aurícula esquerda.

Para melhor esclarecimento efetuou ecocardiograma transesofágico (ETE), que revelou disfunção da prótese mitral (regurgitação patológica intraprotésica moderada a grave presente, de forma intermitente, apenas em alguns ciclos cardíacos) causada pela interposição, também intermitente, da estrutura filamentosa descrita através dos discos da prótese, impedindo o seu normal funcionamento (Figura 1). A fluoroscopia confirmou o encerramento deficiente, intermitente, de um dos discos da prótese mitral (Figura 2).



Figura 2 Fluoroscopia: deficiente encerramento da prótese mitral visualizado por fluoroscopia.



Figura 3 Imagem intraoperatória: *pannus* em prótese aórtica (seta).

Foi reoperado (4.^a vez) no dia 22 de abril de 2010. Intraoperatoriamente foi confirmada a presença de *pannus* na prótese aórtica, ao longo do rebordo da face ventricular do anel protésico, (Figura 3 seta), assim como visualizada uma corda solta do aparelho subvalvular mitral nativo que, por interposição, impedia de forma intermitente a oclusão eficaz dos discos da prótese mitral (Figura 4 seta). Procedeu-se então à remoção do *pannus*, substituição da prótese aórtica e à excisão da referida corda do aparelho subvalvular mitral nativo.

O pós-operatório decorreu sem intercorrências, tendo o doente tido alta ao 8.^o dia pós-operatório. À data da alta o ecocardiograma revelou normal funcionamento das duas próteses mecânicas, sem variação significativa, relativamente ao pré-operatório, dos volumes e da função ventricular.

Passados dois anos da última intervenção cirúrgica o doente encontra-se em classe funcional NYHA II. No último ecocardiograma realizado em março de 2012 as próteses aórtica e mitral estavam normofuncionantes e a fração de ejeção biplanar do VE era de 43%. Observava-se ainda RT ligeira com PSAP de 39 mmHg.

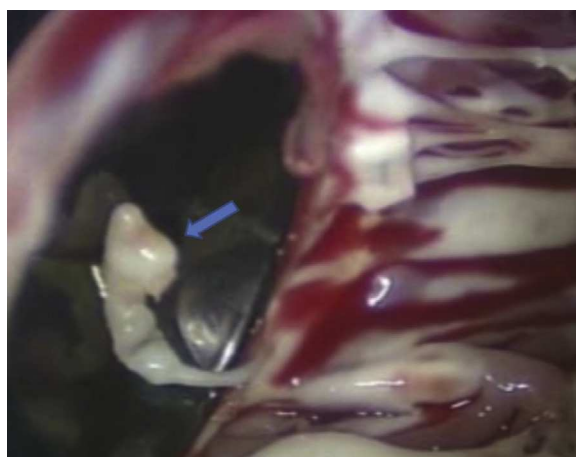


Figura 4 Imagem intraoperatória: corda rota (seta) do aparelho subvalvular mitral que impedia, de forma intermitente, o encerramento da prótese.

Discussão

Quer a trombose quer o desenvolvimento de *pannus* podem causar disfunção protésica de carácter obstructivo. A distinção entre estas duas entidades baseia-se habitualmente em parâmetros de ordem clínica e nos achados da ecocardiografia. Embora possa ocorrer em qualquer altura depois da cirurgia, a trombose é mais frequente quando os sintomas se desenvolvem precocemente após a implantação protésica, cursando habitualmente com uma evolução rápida dos sintomas até à necessidade de reoperação (inferior a um mês)⁶. Níveis inadequados de anticoagulação são igualmente mais habituais nos casos de trombose. Pelo contrário, o aparecimento tardio, muitos anos depois da cirurgia, assim como uma evolução mais lenta e insidiosa dos sintomas, favorecem a hipótese de *pannus*. Em relação à ecocardiografia, os trombos são habitualmente visíveis como massas mais ou menos volumosas, móveis e pouco densas, relacionadas com o(s) disco(s), enquanto o *pannus* consiste num espessamento fixo e denso mais difícil de visualizar pela sua localização circunferencial perianular. A etiologia do *pannus* não está ainda totalmente esclarecida², sendo provavelmente multifatorial. O *pannus* parece consistir numa bio-reacção às próteses mecânicas, valvulares, associado a vários fatores como o *design* protésico, biocompatibilidade, técnica cirúrgica, *mismatch* prótese-doente, infeção, turbulência do fluxo sanguíneo e tensão de cisalhamento da parede^{2,12,13}. Curiosamente, a anticoagulação subterapêutica é considerada como um fator de risco não só para trombose de prótese como para a formação de *pannus*². A trombose e o *pannus* podem coexistir¹⁴.

O efeito hemodinâmico do *pannus* depende da sua localização e extensão⁴. No caso das próteses aórticas mecânicas, ocorre habitualmente do lado ventricular⁴. Para além de condicionar obstrução de grau variável, pode ocasionalmente originar regurgitação protésica patológica por interferência com o encerramento dos discos¹⁵.

No caso acima descrito há que salientar não só a precocidade do aparecimento de *pannus* na prótese aórtica, apenas dois anos após a primeira cirurgia, como também a recorrência de *pannus*, nove anos depois da substituição. Na literatura, em três séries de 23, 615 e 390 doentes com próteses mecânicas maioritariamente aórticas (somente 14 próteses mitrais mecânicas), o tempo médio até reoperação por *pannus* foi de 178 ± 52 meses, 83 ± 52 meses e $10 \pm 7,9$ anos, respetivamente^{2,6,16}, apesar de estarem descritos casos isolados com aparecimento rapidamente progressivo de *pannus*¹⁰. A recorrência de *pannus* no mesmo doente tem sido descrita raramente.

Este caso salienta a importância do ecocardiograma transtorácico pós-operatório de referência, que nos fornece um registo dos parâmetros hemodinâmicos basais da prótese que servirão de controlo para comparação com exames no seguimento do doente, sobretudo em caso de deterioração clínica.

O método cirúrgico atualmente utilizado na implantação de próteses mecânicas em posição mitral contempla a preservação do aparelho subvalvular nativo, para conservar a geometria do VE e prevenir a deterioração da fração de ejeção^{11,17}. Várias técnicas de preservação do aparelho subvalvular mitral estão disponíveis e a sua escolha deve ser individualizada baseada na anatomia, patologia,

função ventricular esquerda e tipo de prótese¹⁸. Existem casos raros de interferência do aparelho subvalvular mitral ou de material da sutura com o funcionamento da prótese que podem ser potencialmente fatais¹⁹. Na maior parte dos casos, esta situação é detetada e corrigida intraoperatoriamente. Este mecanismo de disfunção protésica é mais frequente na patologia valvular reumática. No caso do nosso doente a disfunção da prótese mitral ocorria de forma intermitente, por interposição de uma corda solta entre os discos da prótese, apenas nalguns ciclos cardíacos, o que pode ter dificultado o diagnóstico. Nestes ciclos o encerramento dos discos era incompleto, provocando regurgitação patológica.

Este caso ilustra-nos como um diagnóstico de disfunção protésica intermitente pode ser esquivo, reforçando a importância de uma avaliação cuidadosa e demorada tanto na auscultação como durante o exame ecocardiográfico. O registo Doppler dos gradientes transprotésicos por um período prolongado correspondente a um número alargado de ciclos cardíacos a velocidades de varrimento baixas é essencial para maximizar a oportunidade de diagnosticar as disfunções valvulares intermitentes.

A fluoroscopia (técnica muita vez esquecida) pode ser, nesse contexto, uma técnica útil³.

Também é importante referir, presente neste caso, o risco acrescido de uma 4.ª cirurgia cardíaca (principalmente em substituição de prótese mecânica^{20,21}).

Finalmente, há neste caso a particularidade de o mesmo doente apresentar em simultâneo disfunção protésica mecânica aórtica e mitral, por dois mecanismos diferentes, ambos relativamente raros.

Responsabilidades éticas

Proteção de pessoas e animais. Os autores declaram que para esta investigação não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

Confidencialidade dos dados. Os autores declaram ter seguido os protocolos de seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de pacientes e que todos os pacientes incluídos no estudo receberam informações suficientes e deram o seu consentimento informado por escrito para participar nesse estudo.

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores declaram ter recebido consentimento escrito dos pacientes e/ou sujeitos mencionados no artigo. O autor para correspondência deve estar na posse deste documento.

Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

Agradecimentos

Os autores reconhecem o contributo essencial da Dr.ª Raquel Gouveia e do Dr. Manuel Canada do Serviço de Cardiologia do Hospital de Santa Cruz (Centro Hospitalar Lisboa Ocidental) na investigação ecocardiográfica descrita no caso clínico.

Apêndice. Material adicional

Pode consultar o material adicional para este artigo na sua versão eletrônica disponível em doi: [doi:10.1016/j.repc.2013.06.004](https://doi.org/10.1016/j.repc.2013.06.004).

Bibliografia

1. Aslam AK, Aslam AF, Vasavada BC, et al. Prosthetic heart valves: Types and echocardiographic evaluation. *Int J Cardiol.* 2007;122:99–110.
2. Teshima H, Hayashida N, Yano H, et al. Obstruction of St Jude Medical valves in the aortic position: Histology and immunohistochemistry of pannus. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2003;126:401–7.
3. Vahanian A, Alfieri O, Andreotti F, et al. Guidelines on the management of valvular heart disease (version 2012): The Joint Task Force on the Management of Valvular Heart Disease of the European Society of Cardiology (ESC) and the European Association for Cardio-Thoracic Surgery (EACTS). *Eur Heart J.* 2012;33:2451–96.
4. Darwazah AK. Recurrent pannus formation causing prosthetic aortic valve dysfunction: Is excision without valve replacement applicable? *J Cardiothorac Surg.* 2012;7:62.
5. Durrleman N, Pellerin M, Bouchard D, et al. Prosthetic valve thrombosis: Twenty-year experience at the Montreal Heart Institute. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2004;127:1388–92.
6. Barbetseas J, Nagueh SF, Pitsavos C, et al. Differentiating thrombus from pannus formation in obstructed mechanical prosthetic valves: An evaluation of clinical, transthoracic and transesophageal echocardiographic parameters. *J Am Coll Cardiol.* 1998;32:1410–7.
7. Park B, Park PW, Park CK. Transaortic chordae and pannus removal without redo mitral valve replacement in prosthetic mitral valve malfunction. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2011;39:1057–8.
8. Nagy A, Denes M, Lengyel M. Predictors of the outcome of thrombolytic therapy in prosthetic mitral valve thrombosis: A study of 62 events. *J Heart Valve Dis.* 2009;18:268–75.
9. Shapira Y, Herz I, Vaturi M, et al. Thrombolysis is an effective and safe therapy in stuck bileaflet mitral valves in the absence of high-risk thrombi. *J Am Coll Cardiol.* 2000;35:1874–80.
10. Shi J, Bai ZX, Hu J, et al. Rare early prosthesis obstruction after mitral valve replacement: A case report and literature review. *J Cardiothorac Surg.* 2012;7:64.
11. Pibarot P, Dumesnil JG. Prosthetic heart valves: Selection of the optimal prosthesis and long-term management. *Circulation.* 2009;119:1034–48.
12. Toker ME, Eren E, Balkanay M, et al. Multivariate analysis for operative mortality in obstructive prosthetic valve dysfunction due to pannus and thrombus formation. *Int Heart J.* 2006;47:237–45.
13. Teshima H, Fukunaga S, Takaseya T, et al. Obstruction of St Jude Medical valves in the aortic position: Plasma transforming growth factor type beta 1 in patients with pannus overgrowth. *Artif Organs.* 2010;34:210–5.
14. Hurwitz SE, Waxman D, Hecht S. Acute failure of a St. Jude's prosthetic aortic valve: large pannus formation masked by a small thrombus. *J Am Soc Echocardiogr: Official publication of the American Society of Echocardiography.* 2009;22:1086, e1–3.
15. Cianciulli TF, Saccheri MC, Lax JA, et al. Intermittent acute aortic regurgitation of a mechanical bileaflet aortic valve prosthesis: Diagnosis and clinical implications. *Eur J Echocardiogr.* 2009;10:446–9.
16. Sakamoto Y, Hashimoto K, Okuyama H, et al. Prevalence of pannus formation after aortic valve replacement: Clinical aspects and surgical management. *J Artif Organs.* 2006;9:199–202.
17. Yun KL, Sintek CF, Miller DC, et al. Randomized trial comparing partial versus complete chordal-sparing mitral valve replacement: Effects on left ventricular volume and function. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2002;123:707–14.
18. Athanasiou T, Chow A, Rao C, et al. Preservation of the mitral valve apparatus: Evidence synthesis and critical reappraisal of surgical techniques. *J Cardiothorac Surg.* 2008;33:391–401.
19. Greenwood JP, Nolan J, Mackintosh AF. Late, intermittent obstruction of a mitral prosthesis by chordal remnants. *Eur J Cardiothorac Surg.* 1997;12:804–6.
20. Jones JM, O'Kane H, Gladstone DJ, et al. Repeat heart valve surgery: Risk factors for operative mortality. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2001;122:913–8.
21. Morishita K, Kawaharada N, Fukada J, et al. Three or more median sternotomies for patients with valve disease: role of computed tomography. *Ann Thorac Surg.* 2003;75:1476–80, discussion 81.