

Duplexná synchronná unilaterálna uretero-arteriálna fistula ako príčina hematúrie

MUDr. František Cmorej, MUDr. Erik Chorvát

Urologické oddelenie, Nemocnica Poprad, a. s., Poprad

V článku prezentujeme raritný prípad duplexnej synchronnej unilaterálnej uretero-arteriálnej fistuly u mladej onkologickej pacientky, s jej obťažnou diagnostikou a možnosťami riešenia tohto stavu.

Kľúčové slová: uretero-arteriálna fistula, hematúria, stent, endovaskulárna intervencia.

Duplex synchronous unilateral uretero-arterial fistula as a cause of haematuria

We present a rare case report of duplex synchronous unilateral uretero-arterial fistula in young oncology woman patient with difficult diagnosis process and state-of-the-art solutions of it.

Key words: uretero-arterial fistula, hematuria, stent, endovascular intervention.

Úvod

Uretero-arteriálna fistula (UAF) je pomerne vzácna diagnóza a jej následky môžu byť fatálne. Mortalita sa pohybuje okolo 9 % a morbidita okolo 21 % (1, 2). Prvá nefyziologická komunikácia medzi močovodom a cievou bola opísaná Moschcowitzom v roku 1908, ktorý špecifikoval uretero-arteriálnu fistulu po bilaterálnej ureterolitotómii. Riešením bolo podviazanie vonkajších iliackých tepien (3). V súčasnosti sa zaznamenala zvýšená incidencia UAF, čo je dané nárastom celkového prežívania v kombinácii s rizikovými faktormi (2, 4).

Na vzniku takejto komunikácie sa podieľa väčšinou viacero faktorov. Ide hlavne o radikálnu chirurgickú liečbu v oblasti malej panvy (zväčša opakované intervencie), rádioterapiu malej panvy, chemoterapiu v anamnéze, dlhodobú katetrizáciu ureterov s opakovanými výmenami (5). Najčastejšie postihnutými cievmi sú iliacké artérie (6).

Kazuistika

42-ročná onkologická pacientka so zavedeným ureterálnym stentom vľavo prišla začí-

atkom januára 2018 do našej ambulancie pre hematúriu. Išlo o známu pacientku – s onkologickou diagnózou spinocelulárneho karcinómu maternice – po hysterektómii a bilaterálnej adnexektómii s lymfadenektómiou v roku 2014, ktorá následne absolvovala adjuvantnú rádioterapiu a chemoterapiu. Začiatkom roka 2015 však došlo k rozvoju symptomatickej hydronefrózy vľavo, preto podstúpila drenáž nefrostómiou, keďže implantácia stentu nebola možná pre striktúru distálneho močovodu. Na inom krajskom urologickom pracovisku pokus o reimplantáciu močovodu neúspešný pre početné zrasty, preto ponechaná na nefrostómii ako dlhodobom riešení. V roku 2016 došlo k recidíve karcinómu (Ca) v malej panve (MP), s infiltráciou sigmy a pelvis minoris I. sin. Na chirurgickom oddelení našej nemocnice vo februári 2016 sa realizovala resekcia sigmy a clearance pelvis minoris, tiež v spolupráci s naším oddelením deliberácia ľavého močovodu s obnovením jeho kontinuity, s následnou intubáciou JJ stentom. Pacientku sme postupne zbavili aj nefrostómie a ponechali

sme jej stent ako dlhodobé riešenie. Vzhľadom na intoleranciu nefrostómie hodnotila pacientka zmenu na pig-tail ako výrazné zvýšenie kvality života (QoL). Opakované výmeny stentu bez komplikácií, onkologicky stav priaznivý. Začiatkom januára 2018 prišla pacientka do našej ambulancie pre 1 deň trvajúcu hematúriu. Vykonali sme výmenu stentu, počas ktorej sa prejavila masívna hematúria z ústia ľavého močovodu, pokles aj v krvnom obraze (KO) – potrebná hemosubstitúcia. Realizovali sme CT vyšetrenie, ktorého záverom nebol jasný nález zdroja krvácania, len hemotamponáda dutého systému ľavej obličky, bez vylučovania kontrastnej látky (KL) (bez nálezu fistuly, tumoru...). Vzhľadom na anamnézu pacientky (viacero brušných operácií + MP, stp. RAT, dlhodobý zavedený stent) sme vyslovili podozrenie na uretero-arteriálnu fistulu. Realizovaná selektívna angiografia, na ktorý potvrdený leak KL z arteria iliaca interna (AII) I. sin. do ľavého močovodu (nález na arteria iliaca externa – AIE v norme) (obrázok 1 – lepšiu snímku z dokumentácie nemáme, ale pri



KORESPONDENČNÁ ADRESA AUTORA:

MUDr. František Cmorej, cmorejfrantisek@gmail.com

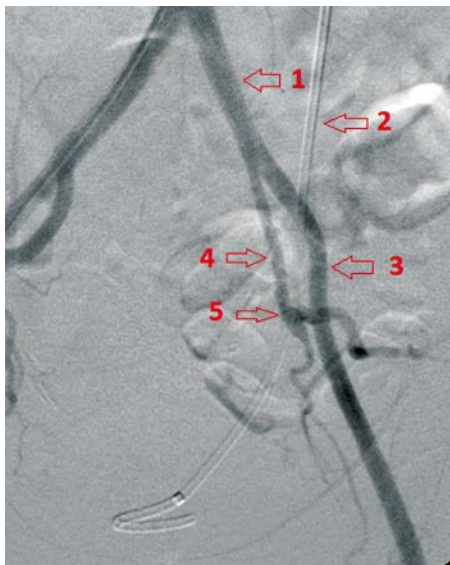
Urologické oddelenie, Nemocnica Poprad, a. s., Banícka 803/28, 058 45 Poprad

Cit. zkr: Urol. praxi 2019; 20(1): 36–39

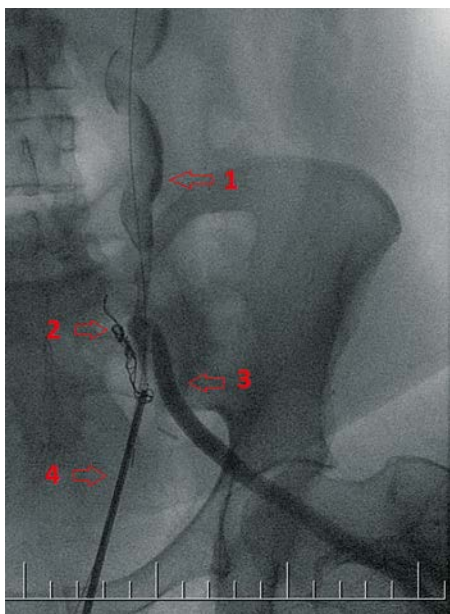
Článok prijat redakci: 3. 7. 2018

Článok prijat k publikácii: 4. 9. 2018

Obr. 1. Angiografia s minimálnym leakom kontrastnej látky pri krížení arteria iliaca interna a ureteru; 1 – arteria iliaca communis sinistra, 2 – pig-tail v ľavom močovode, 3 – arteria iliaca externa sinistra, 4 – arteria iliaca interna sinistra, 5 – leak KL



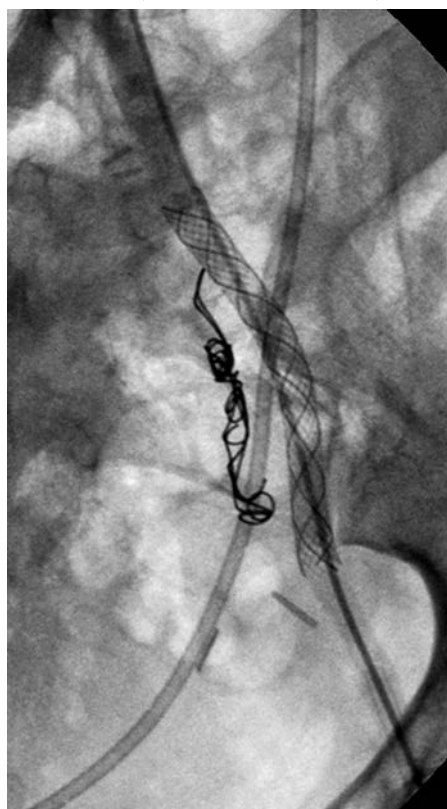
Obr. 2. Diagnostická ureterorenoskopia – maximálne šetriaca, s nálezom leaku kontrastnej látky do vonkajšej iliackej artérie, vidieť aj koily vo vnútornej iliackej artérii po predošlej embolizácii; 1 – dilatovaný močovod s výpadom KL pre hemotamponádu, v močovode aj „safety wire“, 2 – koily vo vnútornej iliackej artérii, 3 – leak kontrastnej látky do vonkajšej iliackej artérie, 4 – ureterorenoskop



skioskopii jasný leak KL). Vykonaná embolizácia AII dvomi koilami. Pooperačný stav primeraný. Dochádza k vyčreniu moču, KO stabilizovaný, pacientka bez ťažkostí.

Na 3. pooperačný deň však došlo k opätovnej hematúrii, poklesu v KO, s potrebou hemosubstitúcie červenej krvnej zložky. Po zvážení možnosti riešenia stavu sme sa priklonili k extrakcii stentu, s ascendentnou urete-

Obr. 3. Implantácia stentgraftu do vonkajšej iliackej artérie, vnútorná iliacká artéria už embolizovaná pri predošlom výkone, v močovode uložený pig-tail



ropyelografiou. Keďže po extrakcii stentu nedošlo k masívnej jasnej hematúrii z močovodu, tak sme vykonali aj maximálne šetriacu diagnostickú ureterorenoskopiю (URS). Vykonaná URS len distálneho močovodu, s aplikáciou KL – zobrazila sa nám ureteroarteriálna fistula medzi arteria iliaca externa l. sin. (obrázok 2). Výkon sme ukončili a implantovali hrubší JJ stent. Konzultovali sme intervenčného rádiológa a indikovali implantáciu stentgraftu do AIE. Výkon bez komplikácií (Seldingerovou metódou cez arteria femoralis) (obrázok 3). Po výkone došlo k postupnému vyčreniu moču, KO sa stabilizoval, s postupnou normalizáciou, renálne parametre v norme. Postupne extrahovaný permanentný katéter, nález ľavej obličky na USG priaznivý. Celkovo počas celej hospitalizácie pacientka dostala 13 erymäs. Pacientku sme prepustili do domácej starostlivosti v stabilizovanom stave, nastavili sme ju na duálnu antiagregačnú liečbu + ATB na prevenciu pred infikovaním stentgraftu od ureterálneho stentu.

Pri ďalších kontrolách bola pacientka stabilizovaná, bez hematúrie, subjektívne spokojná, onkologický a urologický nález bol priaznivý.

Diskusia

Diagnóza uretero-arteriálnej fistuly je naozaj vzácna. Myslieť na ňu by sme mali u pacientov po rozsiahlejších onkologických operáciách v malej panve a brušnej dutine, u pacientov po rádioterapii, stentáži močových ciest, event. s opakovanou inštrumentáciou v močových cestách, s masívnou (zväčša intermitentnou) hematúriou. Diagnóza je väčšinou založená na CT vyšetrení s KL (v ideálnom prípade), s následnou terapiou – preferuje sa elegantná endovaskulárna technika, možnosťou je aj otvorená operačná revízia.

Do roku 1994 bolo opisovaných len 33 prípadov, teraz literatúra uvádza viac ako 150. Stredný vek incidencie je 61 rokov, s miernou predilekciou žien (52 %) a častejším výskytom na ľavej strane (7).

Podľa dostupnej literatúry – kazuistik – sa diagnóza UAF vyskytuje najčastejšie po operáciách gynekologických karcinómov (28 %), nasleduje karcinóm močového mechúra (13 %), potom kolorektálny karcinóm (11 %) a v neposlednom rade po vaskulárnych operáciách či iných malformáciách.

UAF rozdeľujeme podľa patogenézy vzniku na primárne (15 %) a sekundárne (85 %), v niektorých literatúrach aj terciárne (7).

Primárne príčiny sú prirodzené chorobné procesy arteriálneho systému, napr. aneurizma, vaskulárne malformácie, aberantná cieva s následnou erupciou močovodu (7).

Terciárna – tzv. „pregnancy-associated UAF“ – je zapríčinená závažnou infekciou močových ciest počas tehotenstva a výrazným tlakom plodu na ureter. Literatúra opisuje 3 prípady, k ich výskytu došlo pred érou moderných ATB. V novodobej medicíne sa takmer nevyskytuje (8).

Samotná patogenéza vzniku sekundárnej fistuly je pomerne komplikovaná. Vyššie spomínané rizikové faktory (opakované chirurgické intervencie v MP, rádioterapia, chemoterapia, dlhodobá katetrizácia ureteru) vedú k periureterálnej fibróze, s následnou devaskularizáciou ureteru. V danom oslabenom teréne vzniká na podklade prenosu pulzácií z iliackých tepien v mieste kríženia s ureterom tlaková nekróza. Taktiež intraluminálne v močovode vplyvom dlhodobej katetrizácie dochádza k eróziám, čo prispieva k vzniku komunikácie. Vplyvom už vyššie spomínanej

Obr. 4. Výrazné naliehanie (až parciálne prekryvanie) ľavého močovodu so stentom na ľavú vnútornú iliackú artériu, ktoré je nápomocné pri diagnostike (suspekcií) arterio-ureterálnej fistuly; 1 – arteria iliaca externa sinistra, 2 – ľavý ureter s pig-tailom, 3 – arteria iliaca interna sinistra



Obr. 5. Výrazné naliehanie (až parciálne prekryvanie) ľavého močovodu so stentom na ľavú vonkajšiu iliackú artériu; 1 – ľavý ureter s pig-tailom, 2 – arteria iliaca externa sinistra



RAT vzniká ischemizácia vasa vasorum iliackých tepien, čo taktiež vedie k devaskularizácii a oslabeniu tunica adventicia a media, čo podporuje vytvorenie fistuly (9).

Po vytvorení už jasnej komunikácie medzi ureterom a artériou, pig-tail uložený v močových cestách funguje ako chlopňa, čo môže viesť ku klinickému obrazu intermitentnej hematúrie. Hematúria môže vzniknúť spontánne, alebo je prítomný nejaký vyvolávajúci faktor – výmena stentu, začatie antikoagulačnej liečby, angioplastika, event. iná cievna intervencia.

Samotná diagnostika je pomerne ťažká a opiera sa o klinický obraz a zobrazovacie metódy. V klinickom obraze v ideálnom prípade dominuje intermitentná hematúria z daného močovodu, po extrakcii stentu aj s masívnou hematúriou sprevádzanou poklesom červenej zložky v KO.

Zo zobrazovacích metód je indikované CT vyšetrenie, ale senzitivita daného vyšetrenia je pomerne malá. V dostupných kazuistikách viedlo CT vyšetrenie k finálnej diagnóze uretero-arteriálnej fistuly pomerne sporadicky. Príčinou bol stent v močovode, ktorý funguje ako chlopňa, čo bolo aj v našom prípade (10). Pri CT urografii (vylučovacia fáza) sa KL nedostáva do ciev pre tlakový gradient (11).

Nápomocný môže byť obraz distendovaného močovodu, vyplnený koagulami v úzkom kontakte s cievou (obrázky 4, 5). Ďalšou alternatívou je selektívna angiografia (digitálna subtrakčná angiografia), ktorú sme indikovali aj my. Senzitivita sa pohybuje okolo 23–41 %. Spomína sa aj metóda „provocative“ angiografia, pri ktorej sa využíva farmakolo-

gická podpora (antikoagulancia, vazodilatancia, event. fibrinolytika), prípadne mechanická podpora – extrakcia/manipulácia stentu, použitie balónkového katétra a iné. Pri tejto metóde sa senzitivita pohybuje od 29 do 80 % (niektorá literatúra uvádza aj 100 %). Výhodou danej metódy je okrem diagnostiky aj možná okamžitá terapia (12).

Ďalšími metódami sú ascendentná ureteropyelografia (v literatúre je jej senzitivita vyššia ako senzitivita CT), cystoskopia s obrazom arteriálneho pulzujúceho krvácania z ureteru, spomína sa aj ureterorenoskopia, ale táto je vysoko riziková, keďže môže spôsobiť ďalšie natrhnutie močovodu a zhoršenie krvácania (13).

Dominantné postavenie pri riešení takejto fistuly majú v súčasnosti jednoznačne endovaskulárne metódy, či už ide o embolizáciu, implantáciu stentgraftu, alebo iné bypass metódy. Ide o relatívne rýchle terapeutické metódy s minimálnou záťažou pre pacienta a vhodné aj u vysokorizikových pacientov (14). Použitie endovaskulárnych stentov (stentgraftov) na liečbu UAF od ich prvých úspechov v 90. rokoch postupne stúpa (15). Hlavnými benefitmi pri porovnaní s vaskulárnymi bypassmi sú rýchla kontrola krvácania, dobré krátkodobé, ale aj dlhodobé výsledky, čo prezentovali mnohí autori, nízke riziko rekurencie hematúrie a v neposlednom rade aj vyhnutie sa operácii v danom zjazvenom a rádioterapiou zmenenom teréne (11). Problémom môže byť infikovanie stentgraftu/cievneho stentu, preto je potrebná ATB profylaxia a najlepšie aj sterilná kultivácia moču pred výkonom, čo

samozrejme nie je vždy možné. Vhodná je aj dočasná zmena derivácie močových ciest zo stentu na nefrostómiu.

V krajnom prípade sa môže vykonať aj otvorená revízia. Tá sa v súčasnosti veľmi neodporúča, lebo literatúra uvádza pri otvorenej revízii a pri nejasnom zdroji krvácania mortalitu až 64 % a retreatment až 25 %, kým pri už stanovenej diagnóze a následnej elektívnej operácii je mortalita minimálna (16). Podstatou otvorenej revízie je reimplantácia močovodu preč od ciev, s interpozíciou vitálneho tkaniva, v prípade atrofickej obličky je plne indikovaná nefrektómia s ureterektómiou, s následnými cievnyimi bypass metódami. V modernej medicíne sa tieto obzvlášť komplikované prípady dajú riešiť elegantne a miniinvazívne, pri takmer nulovej mortalite.

Záver

Uretero-arteriálna fistula nie je v urologickej praxi štandardnou každodennou diagnózou, hematúria však áno. Preto „TAKE HOME MESSAGE“ z uvedenej kazuistiky je u vybraných pacientov s hematúriou myslieť aj na tento zdroj krvácania, aktívne a promptne pristupovať k diagnostike a riešeniu takéhoto stavu v spolupráci s chirurgom, rádiológom, intervenčným rádiológom a angiochirurgom, keďže ide o potenciálne život ohrozujúce arteriálne krvácanie. Súčasťou diferenciálnej diagnostiky by mala byť hlavne u pacientov s hematúriou v kombinácii s triádou – RAT, radikálne operácie malej panvy a stenting ureterov.

Autor prohlašuje, že zpracování článku nebylo podpořeno žádnou společností.

LITERATÚRA

1. Van den Bergh RC, Moll FL, de Vries JP, et al. Arterio-ureteral fistula: 11 new cases of a wolf in sheep's clothing. *J Urol* 2008; 179(2): 578–581.
2. Van den Bergh RC, Moll FL, de Vries JP, Lock TM. Arterio-ureteral, fistulas: unusual suspects-systematic review of 139 cases. *Urology* 2009; 74(2): 251–255.
3. Moschcowitz A. Simultaneous ligation of both external iliac arteries for secondary hemorrhage following bilateral ureterolithotomy. *Annals of Surgery* 1908; 48: 872–875.
4. Okada T, Yamaguchi M, Muradi A, et al. Long-term results of endovascular stent graft placement of ureteroarterial fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2013; 36(4): 950–956.
5. Vaňová Z, Čapoun O, Macek P, Keclík R, Chocholová S, Hanuš T. Arterio-ureterální píštěl u pacienta s kolorektálním karcinomem. *Urologie pro praxi* 2015; 16(5): 229–232.
6. Hanuš T, Novák K, et al. Nemoci močového. Praha: Galén 2008: 111 s.
7. Pillai KA, Anderson ME, Reddick MA, Sutphin PD, Kalva SP. Ureteroarterial Fistula: Diagnosis and Management. *American Journal of Roentgenology* 2015. Dostupné z: <https://www.ajronline.org/doi/pdf/10.2214/AJR.14.13405>.
8. Bergqvist D, Parsson H, Sherif A. Arterio-ureteral fistula: a systematic review. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2001; 22: 191–196.
9. Zweers H, Van Driel M, Mensink H. Iliac artery-ureteral fistula associated with an indwelling ureteral stent. *Urol Int* 1991; 46: 213–214. Dostupné z: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2053236>.
10. Kim DH, Mahdy A, Mundra V, et al. Ureteroarterial fistula. *Case Rep Med*. 2009. Dostupné z: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2777240/>.
11. Hirsh LM, Amirian MJ, Hubosky SG, Das AK, Abai B, Lallas CD. Urologic and endovascular repair of a uretero-iliac artery fistula. *Can J Urol* 2015; 22(1): 7661–7665.
12. Johnston C, Tuite D, Pritchard R, et al. Use of provocative angiography to localize site in recurrent gastrointestinal bleeding. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2007; 30(5): 1042–1046.
13. Madoff DC, Gupta S, Toombs BD, et al. A case of iliac-artery-ureteral fistula managed with a combined endoscopic approach. *Nat Clin Pract Urol* 2008; 5: 225–228.
14. Araki T, Nagata M, Araki T, et al. Endovascular treatment of ureteroarterial fistulas with stent-grafts. *Radiat Med* 2008; 26(6): 372–375.
15. Kerns DB, Darcy MD, Baumann DS, Allen BT. Autologous vein-covered stent for the endovascular management of an iliac artery-ureteral fistula: case report and review of literature. *J Vasc Surg* 1996; 24(4): 680–686.
16. Aslam MZ, Kheradmand F, Patel N, Cranston D. Uretero-iliac Artery Fistula: A Diagnostic and Therapeutic Challenge. *Advances in Urology* 2010. Dostupné z: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2866967/>.