

Insuficiencia Respiratoria Aguda Post-Infección Respiratoria: Serie de Casos de Ortodeoxia por Foramen Oval Permeable en Un Hospital de Tercer Nivel

Reporte de Caso

María Aguado-Agudo¹, Jorge Rodríguez-Sanz¹, Laura Martín-Biel¹ y Luis Cerdán²

¹ Hospital Universitario Miguel Servet, servicio de Neumología

² Hospital Universitario Miguel Servet, servicio de Cardiología

Fecha de recepción del manuscrito: 09/Junio/2022

Fecha de aceptación del manuscrito: 09/Julio/2022

Fecha de publicación: 18/Julio/2022

DOI: 10.5281/zenodo.6857168

Creative Commons: Esta obra está bajo una Licencia Creative Commons Atribución-NoComercial-SinDerivadas 4.0 Internacional.

Resumen— Los defectos del septo interauricular (SIA) suponen una de las anomalías cardíacas congénitas más frecuentes. El foramen oval permeable (FOP) está presente en un 25 % de la población adulta y permite el paso de sangre de la circulación venosa a la arterial, provocando un shunt. La mayoría de los sujetos permanecen asintomáticos hasta la edad adulta, donde tras un proceso intercurrente, empiezan a manifestar la clínica propia del síndrome platipnea-ortodeoxia (SPO). En relación con la pandemia por COVID-19, se han descrito hallazgos de FOP tras haber superado una neumonía bilateral por SARS-CoV-2, poniendo en manifiesto la importancia del diagnóstico precoz para evitar complicaciones graves en este tipo de pacientes. Presentamos dos casos donde el hallazgo de FOP fue incidental tras haber superado infecciones respiratorias. **Rev Med Clin 2022;6(2):e18072206014**

Palabras clave—Síndrome Platipnea-Ortodeoxia, Foramen Oval Permeable, SARS-CoV-2, Insuficiencia Respiratoria Aguda

Abstract—**Acute Respiratory Failure Post-Respiratory Infection: Case Series of Orthodeoxy by Patent Foramen Ovale in a Third-Level Hospital**

Atrial Septal Defects (ASDs) are one of the most common congenital heart anomalies. The patent foramen ovale (PFO) is present in 25 % of the adult population and allows the passage of blood from the venous to the arterial circulation, causing a shunt. Most of the subjects will remain asymptomatic until adulthood, where after an intercurrent process, they begin to manifest the symptoms of platypnea-orthodeoxia syndrome (SPO). In relation to the COVID-19 pandemic, findings of PFO have been described after overcoming bilateral SARS-CoV-2 pneumonia, highlighting the importance of early diagnosis to avoid serious complications in this type of patient. We present two cases where the finding of PFO was incidental after having overcome respiratory infections. **Rev Med Clin 2022;6(2):e18072206014**

Keywords—Platipnea-Orthodeoxy Syndrome, Patent Foramen Ovale, SARS-CoV-2, Acute Respiratory failure

INTRODUCCIÓN

El síndrome Platipnea-Ortodeoxia (SPO) es una entidad clínica rara caracterizada por disnea posicional (platipnea) y desaturación arterial (ortodeoxia) que aparece con el ortostatismo, mejorando ambas condiciones al adoptarse posición de decúbito. La fisiopatología todavía no está clara y su prevalencia real aún es desconocida.^{1,2}

La causa de este SPO se produce por una mezcla vía shunt de sangre venosa desoxigenada con sangre arterial oxigenada. Su origen puede ser cardíaco o extracardiaco. La causa más frecuente cardíaco es el foramen oval permeable (FOP), mientras que la extracardiaca son las malformaciones arteriovenosas intrapulmonares (MAVP).²

Presentamos una serie de dos casos de FOP con SPO, donde ambos comenzaron con clínica respiratoria tras pasar una infección. En ambos casos, resulta de especial interés la mínima sintomatología que acompaña al SPO a pesar del importante descenso de la saturación arterial de oxígeno (SpO₂).

REPORTE DE CASO

Caso 1. Se trata de una mujer de 75 años con antecedentes de HTA, DLP, DM2 y enfermedad intersticial pulmonar secundaria a síndrome Sjogren -que no había precisado oxígeno domiciliario crónico (OCD)-. Sin antecedentes de tabaco ni exposición a tóxicos.

Ingresa por neumonía COVID-19. Durante su estancia hospitalaria, sufre un empeoramiento clínico, precisando oxigenoterapia a alto flujo (OAF), plasma hiperinmune y tocilizumab. Tras dos semanas y negativización de PCR SARS-CoV-2 es trasladada a planta de MI. Se inicia rehabilitación y durante la misma, objetivamos importante desaturación de oxígeno al realizar la sedestación, que no se correlaciona con la clínica, ya que no presenta taquipnea, cianosis ni disnea.

Se solicita angio-TC tórax para descartar tromboembolismo pulmonar. En este, se evidencian signos de sobrecarga cardíaca derecha sin empeoramiento de su enfermedad intersticial pulmonar ni presencia de MAVP.

Tras descartar complicaciones agudas y ante la sospecha de un posible SPO, se solicita ecografía transtorácica (ETT) y transesofágica (ETE), identificando la existencia de un FOP con paso importante de burbujas de forma basal de cavidades derechas a izquierdas (Figura 1). Se comenta con la unidad de Cardiopatías Congénitas de Cardiología y se programa cateterismo para cierre de FOP mediante dispositivo Figulla, el que tiene lugar sin incidencias (Tabla 1).

Datos de contacto: María Aguado-Agudo, C/Asia nº19, 7°C, Zaragoza, España, Tel: +34 976 765 500, aguadomaria9@gmail.com

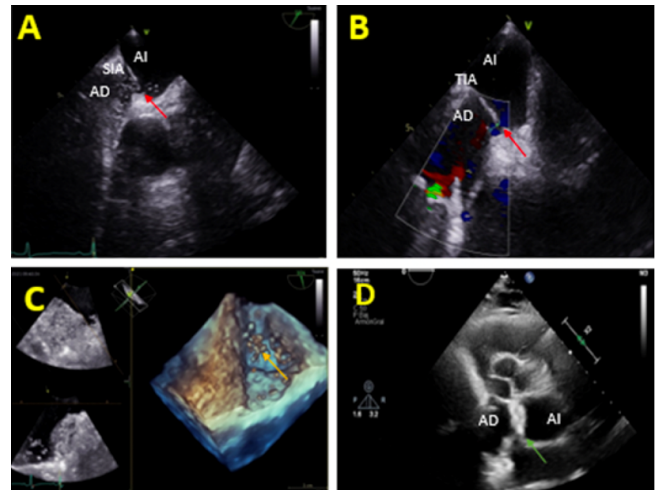


Figure 1: A) Ecocardiograma transesofágico (ETE) con suero salino agitado que muestra paso significativo precoz de burbujas desde aurícula derecha (AD) a aurícula izquierda (AI) a través del foramen oval permeable (FOP) (Flecha roja); SIA (Septo interauricular). B) ETE con Doppler color donde se objetiva shunt derecha-izquierda. C) Test de suero salino agitado positivo precoz mostrando burbujas en AI (Flecha amarilla) en imagen de ETE 3D. D) Ecocardiograma transtorácico (ETT) tras cierre del FOP con dispositivo Figulla (R) (Flecha verde).

Caso 2. Se trata de un varón de 40 años sin antecedentes médico-quirúrgicos de interés, salvo infección reciente por COVID-19. No tabaquismo ni exposición a tóxicos. Ambiente epidemiológico de bronquitis viral de convivientes en domicilio.

Acude a urgencias por disnea brusca que había comenzado la madrugada de su llegada al hospital. Refería malestar general con posterior febrícula y tos con esputos marronáceos durante varios días.

A nuestra valoración inicial, nos encontramos a un paciente con insuficiencia respiratoria aguda (IRA), que precisa oxigenoterapia con cánulas nasales a 2 litros por minuto para mantener SpO₂ alrededor de 94%. Ante este escenario, solicitamos angio-TC de tórax para descartar tromboembolismo pulmonar (TEP) u otras complicaciones, el que resulta negativo. En la analítica de sangre destaca ligero patrón bacteriano de leucocitosis con neutrofilia, PCR y procalcitonina ligeramente elevadas pero ninguna prueba de imagen constata foco consolidativo en tórax. Se lleva a cabo espirometría y gasometría arterial con resultados dentro de la normalidad, así como PCR para virus respiratorio sincitial, gripe y SARS-CoV-2, que también son negativos.

Durante su ingreso hospitalario en planta, continua con disnea y objetivamos desaturaciones de oxígeno con los cambios de postura. Llevamos a cabo la exploración sin oxigenoterapia y con distintos grados de inclinación de la cama y observamos que hay variaciones en la SpO₂, a la par que se incorpora el cabecero; de manera que comienza en decúbito supino saturando a 96%; a 45° SpO₂ 94%; a 90° SpO₂ de 92% y sentado a borde de cama con piernas por fuera SpO₂ de 90-91%.

	SpO2 antes del cierre del FOP		SpO2 después del cierre del FOP	
	Gafas nasales a 3 lts x min	Gafas nasales a 5 lts x min	Gafas nasales a 2 lts x min	Basal
Decúbito supino	93 %	93 %	95-98 %	91 %
45° en cama	90 %	93 %	95-98 %	91 %
90° en cama	87 %	92 %	95-98 %	91 %
Sedestación	80 %	85 %	95-98 %	91 %

TABLA 1: COMPARACIÓN SP02 ANTES Y DESPUÉS DEL CIERRRE DEL FOP, CASO 1.

Ante esta clínica de ortodeoxia y ante sospecha de SPO, se solicita ecocardiograma con burbujas para descartar foramen oval permeable (FOP), donde se confirma (Figura 2). Tras este hallazgo, se solicita colaboración al departamento de Unidad de Cardiopatopatías Congénitas de Cardiología para manejo del FOP, los que pautan control sintomático y seguimiento en consultas por el momento.

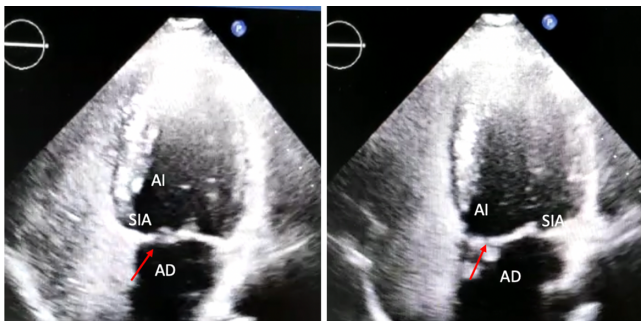


Figure 2: Ecocardiograma transesofágico (ETE) con paso de burbujas desde aurícula derecha (AD) a aurícula izquierda(AI) a través de Foramen Oval Permeable (FOP) (Flecha roja); SIA (Septo interauricular).

DISCUSIÓN

El SPO es un síndrome poco documentado, que fue descrito por primera vez por Burchell et al en 1949. Se trata de un síndrome probablemente infradiagnosticado, ya que, de forma rutinaria, no se miden las constantes en posición de decúbito y erguida.¹⁻⁴

La caída de SpO2 >5 % entre diferentes posiciones (vertical, en decúbito supino y en posición erguida), debe hacernos sospechar un posible SPO. El estudio de ETE con burbujas positivo confirma el diagnóstico y es el cierre de la comunicación interauricular – en casos en los que el FOP es importante- lo que logra una resolución casi completa de los síntomas en la mayoría de los pacientes, con tasas de recurrencias muy bajas.⁴

El FOP es un defecto cardíaco congénito, sin embargo, ambos pacientes permanecieron asintomáticos hasta la edad adulta, donde se hizo sintomático tras pasar una infección respiratoria. Normalmente el FOP asocia un mínimo o nulo shunt izquierda-derecha, por lo que el desarrollo del shunt significativo se debe explicar por una anomalía adquirida. Para que se produzca el SPO cardíaco deben de coexistir

un componente anatómico y otro funcional- tales como hipertensión pulmonar o aumento de la presión intratorácica – que produce deformidad del septo auricular, condicionando un cambio de dirección del flujo del shunt con la posición ortostática.⁵⁻⁷

La neumonía COVID-19 produce un desajuste V/Q con diferencias en las regiones apicales y basales pulmonares. En posición vertical, las regiones apicales actúan como un espacio muerto, aumentando el desajuste V/Q que conducen a una derivación fisiológica -shunt intrapulmonar- y a SPO. Además, se ha demostrado que el SARS-CoV-2 produce inclusiones virales en células endoteliales con acúmulos de células inflamatorias, conduciendo a una activación endotelial que puede dar lugar a fenómenos trombóticos. A nivel pulmonar, la vasodilatación y la disfunción endotelial agravan el shunt y aumentan la discordancia V/Q, lo que contribuye a la hipoxemia.⁶

En estudios previos se sugiere que en pacientes con neumonía COVID-19, la propia infección es la que produce una elevación anormal de la aurícula derecha, provocando así el inicio de la clínica del FOP, e incrementando aún más la hipoxemia basal de la infección viral. Lo mismo ocurre al pasar cualquier infección ya sea clínica o viral respiratoria, diferente al SARS-CoV-2.^{8,9}

Hay descritos casos de SPO con MAVP, en los que se evidencia ortodeoxia severa sin platipnea. Las MAVP provocan hipoxemia por un cortocircuito derecha-izquierda. Santhirapala llevó a cabo un estudio prospectivo de 8 años con 257 pacientes que tenían MAVP en el que se observó en todos ellos ortodeoxia sin platipnea. Son diferentes autores los que sugieren que existen mecanismos compensatorios como la policitemia y la taquicardia ortostática postural que pueden mantener un suministro de oxígeno tisular suficiente durante la ortodeoxia, lo que explicaría la ausencia de platipnea.¹⁰

En nuestros dos casos, se cerró el FOP en el caso 1 debido a la clínica y por el importante paso de burbujas mediante un dispositivo interauricular y la clínica cedió por completo. En el caso 2 no se llevó a cabo la intervención quirúrgica, pues el paso de burbujas era mínimo y normalmente con la resolución del cuadro infeccioso, la clínica suele remitir.

Esta serie de 2 casos que presentamos, la consideramos de especial importancia dado que demuestra que el SPO a consecuencia de la existencia de un FOP como única causa de

shunt anatómico – sin presencia de MAVP- con insuficiencia respiratoria no siempre se acompaña de síntomas, lo que hace más peligroso para los pacientes con infección SARS-CoV-2. Consideramos que sería importante evaluar SpO₂ durante bipedestación y en decúbito aun sin clínica manifiesta, ya que el manejo y el tratamiento adecuado pueden mejorar la calidad de vida de nuestros pacientes.

FINANCIAMIENTO

El financiamiento del trabajo fue cubierto por los autores.

CONFLICTO DE INTERÉS

Los autores niegan presentar conflictos de interés en éste trabajo

REFERENCIAS

- [1] Burchell HB, Helmolz HF Jr, Wood EH. Reflex orthostatic dyspnea associated with pulmonary hypotension. *Am J Physiol.* 1949; 159:563-4.
- [2] Agrawal A, Palkar A, Talwar A. The multiple dimensions of Platypnea-Orthodeoxia syndrome: A review. *Respir Med.* 2017;129:31–8. doi: 10.1016 / j.rmed.2017.05.016
- [3] Longo C, Ruffini L, Zanoni N, Longo F, Accogli R, Graziani T, et al. Platypnea-orthodeoxia after fibrotic evolution of SARS-CoV-2 interstitial pneumonia. A case report. *Acta Bio-med.* 2020;91(3):1–7. doi: 10.23750 / abm.v91i3.10386.
- [4] Yepes I, Ji S, Wu F, Tijmes S, Roberts J. PlatypneaOrthodeoxia Syndrome: Rare or Under-Diagnosed Syndrome? 3 Case Reports and a Literature Review. *Cardiovasc Revascularization Med.* 2021;22(xxxx):115–9. doi: 10.1016 / j.carrev.2020.06.002.
- [5] Sabater Abad C, Juan Samper G, Payá Serrano R, Pérez Bosca JL, Ramón Capilla M, Fernandez Fabrellas E. Síndrome platipnea-ortodeoxia cardiaco: una causa «misteriosa» de hipoxemia. *Archivos de Bronconeumología.* 2016;52(9):494-5. doi: 10.1016 / j.arbres.2016.02.003.
- [6] Cheng TO. Mechanisms of platypnea-orthodeoxia: What causes water to flow uphill? *Circulation.* 2002;105:e47.
- [7] Tarrasó Castillo J, Posadas Blázquez TJ, Lahosa Córdoba C, Signes-Costa J. COVID-19: New disease, new manifestations. *Arch Bronconeumol.* 2020 Dec;56(12):825-26. doi: 10.1016 / j.arbres.2020.07.007.
- [8] Vanhomwegen C, Taton O, Selvais N, Vanhove O, Leduc D. Patent foramen ovale revealed by COVID-19 pneumonia. *BMC Pulm Med.* 2021;21(1):1–4. doi: 10.1186 / s12890-021-01494-7.
- [9] Calvert PA, Rana BS, Kydd AC, Shapiro LM. Patent foramen ovale: Anatomy, outcomes, and closure. *Nat Rev Cardiol.* 2011;8(3):148–60. doi: 10.1038 / nrcardio.2010.224.
- [10] Santhirapala V, Chamali B, McKernan H, Tighe HC, Williams LC, Springett JT, et al. Orthodeoxia and postural orthostatic tachycardia in patients with pulmonary arteriovenous malformations: A prospective 8-year series. *Thorax.* 2014;69(11):1046–7. doi: 10.1136 / thoraxjnl-2014-205289.