

# Heropenen van het foramen ovale na pneumonectomie: dypneu ten gevolge van een rechts-links-shunt

Reopening the foramen ovale after pneumonectomy: dypnoe due to a right-left shunt

**Auteurs** A. Becker, W.N. Welvaart, J.T. Marcus, A. Vonk-Noordegraaf, J.W.A. Oosterhuis en M.A. Paul

**Trefwoorden** complicatie, diafragma, PFO, pneumonectomie, reven, shunt

**Key words** complication, diaphragm, pneumonectomy, plication, PFO, shunt

## Samenvatting

In dit artikel wordt een zeldzame langetermijncomplicatie beschreven van rechtszijdige pneumonectomie en bilobectomie: shunting door een patent foramen ovale (PFO). Er worden 3 patiënten beschreven met een rechts-links-shunt door een PFO na longresectie. Bij deze patiënten was compressie van het rechterventrikel door een hoogstaand rechterdiafragma de oorzaak van een shunt door het PFO. Deze complicatie werd effectief verholpen door reven van het rechterdiafragma.

*(Ned Tijdschr Oncol 2010;7:198-202)*

## Summary

This manuscript will focus on a rare complication: shunting through a patent foramen ovale (PFO) as a long term complication of right sided pneumonectomy or bilobectomy. Three patients who were diagnosed with shunting through a patent foramen ovale following lung resection are described. In these patients right ventricular compression by the elevated right hemidiaphragm was the cause of shunting through the PFO and surgical plication of the right hemidiaphragm was sufficient to close the PFO.

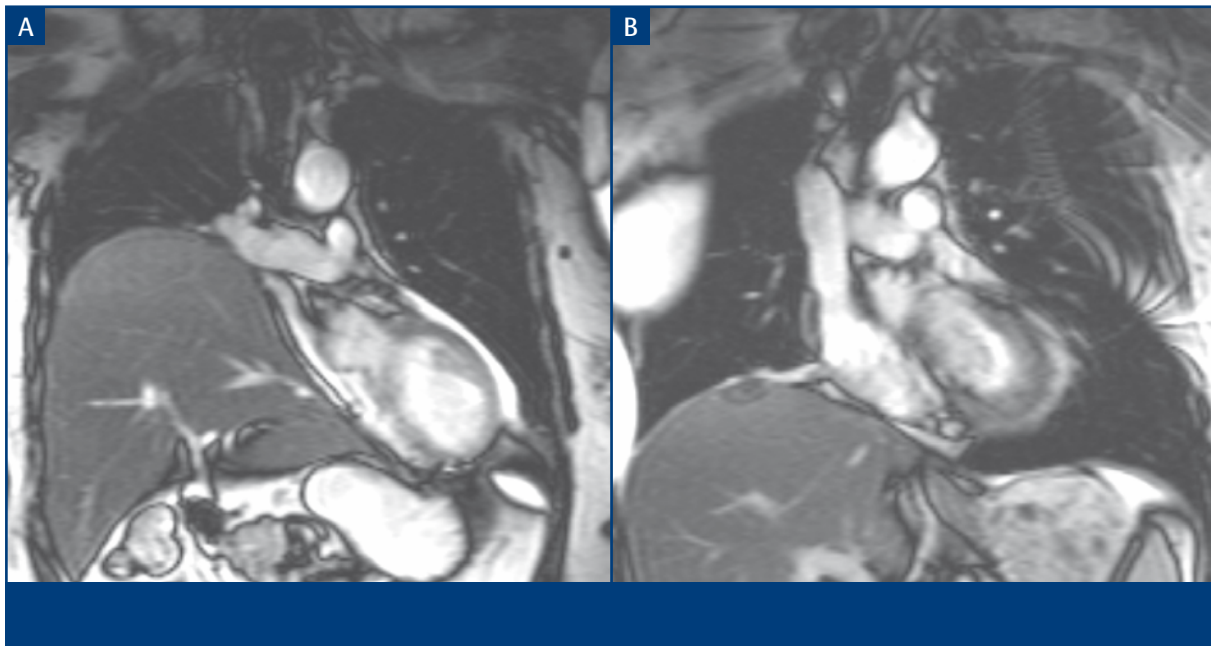
## Inleiding

Een pneumonectomie is een ingreep die frequent aanleiding geeft tot complicaties. De meest frequente complicaties zijn empyemen, fistels, hartproblemen en respiratoire insufficiëntie. Bovendien kunnen er complicaties op de lange termijn volgen.

Na een pneumonectomie ontstaan anatomische aanpassingen, waarbij intrathoracale structuren zich repositioneren. Gebruikelijke veranderingen zijn een hoogstand van het hemidiafragma (vooral als de nervus phrenicus is doorgenomen), mediastinale verplaatsing, een verkleinde intercostale ruimte en vulling van de postpneumonectomieholte met vloeistof. De meest beschreven complicatie is het postpneumonectomiesyndroom. Hierbij wordt de overgebleven bronchus na mediastinale rotatie vernauwd door druk tegen de wervelkolom of aorta. Aangezien de repositionering van de organen jaren

kan duren, kunnen deze symptomen na 5 tot 10 jaar nog ontstaan.

Dit artikel zal ingaan op een zeldzame complicatie: shunting door een patent (heropend) foramen ovale (PFO) als langetermijncomplicatie van een rechtszijdige pneumonectomie of bilobectomie. Er zijn slechts enkele publicaties bekend over dit onderwerp. Waarschijnlijk is er sprake van een onderrapportage, omdat het vaststellen van een PFO moeilijk is, zeker na een pneumonectomie. Hieronder zullen wij 3 patiënten beschrijven die gediagnosticeerd zijn met een shunt door hun PFO na een (partiële) longresectie. Deze shunt werd veroorzaakt door compressie van het rechterventrikel door een hoogstaand rechterdiafragma. Bij alle patiënten werd de shunt door het PFO opgeheven door het rechterdiafragma te reven.



**Figuur 1.** Coronaal MRI-beeld van patiënt C, voor (A.) en na (B.) reven van het rechterdiafragma. Na het reven is de compressie van het rechterventrikel verdwenen en een functionele sluiting van het patente foramen ovale bereikt.

## Patiëntbeschrijvingen

### *Patiënt A*

Een 67-jarige man onderging 14 jaar geleden een rechtszijdige pneumonectomie vanwege een endobronchiaal carcinoïd. Om een complete resectie te bereiken, werd een deel van het pericard verwijderd met doornemen van de nervus phrenicus. Jaren later ontwikkelde hij een progressieve dyspneu bij inspanning en bij vooroverbuigen. Echocardiografie liet een rechts-links-shunt zien tijdens verhogen van zijn intra-abdominale druk (Valsalvamaeuve) met een shuntfractie van 18%. Verdere analyse in het VU medisch centrum door middel van rechtskatheterisatie toonde in rust een gemiddelde druk in het rechteratrium ('right atrial pressure'; RAP) van 3 mmHg, een gemiddelde druk in de arteria pulmonalis ('pressure arteria pulmonalis'; PAP) van 15 mmHg en een wiggendruk van 5 mmHg (normale drukken). Tijdens verhogen van de intra-abdominale druk door het heffen van zijn benen steeg de RAP naar 26 mmHg, terwijl de PAP en de rechterventrikeldruk gelijk bleven. Het verhogen van de intra-abdominale druk veroorzaakte dus een drukgradiëntmechanisme resulterend in een rechts-links-shunt door zijn PFO. Dit werd bevestigd door een dynamische MRI (wederom met een verhoogde intra-abdominale druk door heffen van de benen) die compressie van het rechterventrikel door het rechterdiafragma liet zien met een shunt door zijn PFO. Dientengevolge

werd een rethoracotomie verricht met reven van het diafragma. Postoperatief was zijn dyspneu volledig verdwenen, evenals de desaturaties bij vooroverbuigen.

### *Patiënt B*

Deze 65-jarige vrouw kreeg een rechtszijdige pneumonectomie vanwege een niet-kleincellig longcarcinoom. Tien maanden later presenteerde zij zich met dyspnée d'effort. Met een fietstest werd een desaturatie van 93% naar 85% vastgesteld bij een maximale inspanning van slechts 30 Watt. Echocardiografie toonde een klein rechteratrium en ventrikel met een rechts-links-interatriale shunt. Met rechterhartkatheterisatie werd in rust een RAP van 5 mmHg, een gemiddelde PAP van 15 mmHg en een wiggendruk van 5 mmHg gemeten. Met een dynamische MRI werd ook bij deze patiënt een complete rechterventrikelcompressie gezien door een hoogstaand rechterdiafragma met daardoor een shunt door een PFO. Een causale relatie was wederom waarschijnlijk. Er vond een chirurgische diaframacorrectie plaats door deze te reven. Postoperatief waren er geen aanwijzingen meer voor een shunt; haar saturatie in rust was 98% en tijdens fietsergometrie 92%. Helaas kreeg zij 5 maanden later weer dyspneu. Dit keer was er sprake van een postpneumectomiesyndroom waarbij de linkerhoofdbronchus werd gecompriëerd na mediastinale rotatie. Zij onderging voor de derde keer een thoracotomie voor mediastinale repositie en plaatsing

van siliconenprothesen. Daarna kon ze haar dagelijkse activiteiten weer oppakken.

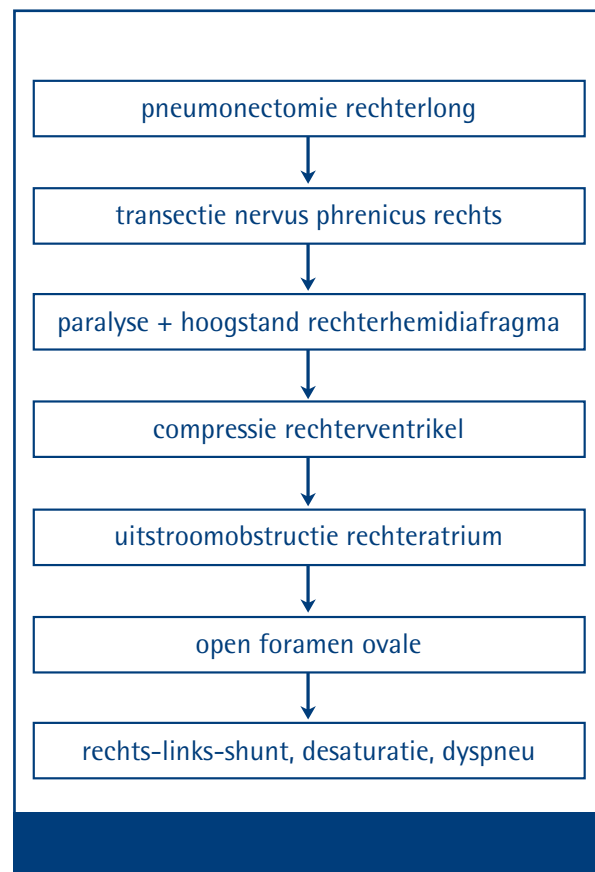
#### *Patiënt C*

Dertien maanden na resectie van haar rechter onder- en middenkwab in verband met een niet-kleincellig longcarcinoom zagen wij deze 65-jarige vrouw met progressieve dyspneu welke refractair was voor zuurstof. De dyspneu trad voornamelijk op bij platliggen en bij ligging op de rechterzij. Tijdens de operatie was de nervus phrenicus en-bloc verwijderd met de tumor, hetgeen resulteerde in een diafragma-paralyse. Echocardiografisch werd een shunt door een PFO vastgesteld en normaal functionerende ventrikels. De PAP was normaal (9 mmHg). Een dynamische MRI demonstreerde een verlamd, hoogstaand diafragma dat tegen het rechterventrikel duwde, resulterend in een gecompriemd en gerooteerd hart (zie *Figuur 1*, pagina 199). Voornamelijk tijdens inspanning werd het rechterventrikel volledig gecompriemd met een interatriale rechts-links-shunt als gevolg. Dit fenomeen kon worden verklaard door een paradoxale opwaartse beweging van het rechterdiafragma tijdens inspanning leidend tot rechterventrikelcompressie. Door een uitstroombepijking van het rechterventrikel steeg de druk in het rechteratrium dermate dat een rechts-links-shunt ontstond door een PFO. Hetzelfde mechanisme trad op wanneer de intra-abdominale druk werd verhoogd. Zittend was de saturatie 91% en liggend 85%.

Voor de derde maal werd een rechterventrikelcompressie geconstateerd door een hoogstaand rechterdiafragma met een rechts-links-shunt door een PFO als gevolg. Patiënte was conditioneel niet geschikt voor openhartchirurgie. Er werd ook afgezien van een percutane sluiting van het PFO, omdat dit de rechterventrikelcompressie niet zou opheffen. Om deze redenen werd een rechtszijdige thoracotomie verricht met reven van het diafragma. Postoperatief kreeg zij een pneumonie die succesvol met antibiotica werd behandeld. Er was niet langer sprake van ventrikelcompressie of een shunt.

#### Discussie

Dyspneu na een pneumonectomie heeft een lange differentiële diagnose. Perioperatief moet in eerste instantie worden gedacht aan een pneumonie van de overgebleven long, longoedeem, een empyeem in de pneumonectomieholte, longembolieën en cardiale problematiek. Na ongeveer 6 maanden kan bij rechtszijdige pneumectomie het postpneumectomiesyndroom



**Figuur 2.** Mechanisme van dyspneu na pneumonectomie, zoals beschreven in dit artikel.

overwogen worden, zoals beschreven in de inleiding. In de beschreven patiënten werd de dyspneu verklaard door een hoogstaand diafragma dat de rechterventrikel comprimeerde, leidend tot een uitstroombemmering van het rechteratrium met als gevolg een shunt door een PFO (zie *Figuur 2*). Door reven van het diafragma werd de interatriale drukgradiënt opgeheven en de shunt gestopt.

Een interatriale shunt wordt bij postpneumonectomiepatiënten bij voorkeur gesloten door middel van een percutane katheterisatie.<sup>1-3</sup> Dit is minimaal invasief en effectief gebleken. Bij bovengenoemde patiënten was de shunt door een PFO slechts 1 aspect van het probleem. Na een percutane sluiting van het PFO zou de interatriale shunt weliswaar stoppen, maar de rechterventrikelcompressie door het diafragma wordt daarmee niet opgeheven, noch de verhoogde druk in het rechteratrium. Daarom werd verondersteld dat het logischer zou zijn om de oorzaak van de shunt aan te pakken. Bovendien was een percutane procedure bij patiënt C technisch niet mogelijk.

## Aanwijzingen voor de praktijk

1. Denk bij patiënten met dyspneu die een longresectie in de voorgeschiedenis hebben aan een rechts-links-shunt door een patent foramen ovale.
2. Hoogstand van het rechterdiafragma kan leiden tot rechterventrikelcompressie met een rechts-links-shunt als gevolg.
3. Reven van een hoogstaand rechterdiafragma is een effectieve therapie bij mensen met rechterventrikelcompressie ten gevolge van deze hoogstand.

In de bovenbeschreven patiënten was de bloedstroom door de PFO niet continu, maar intermitterend. Bij het verhogen van de intra-abdominale druk werd een rechts-links-shunt gecreëerd door een drukgradiëntmechanisme. Bij de eerste patiënt werd de intermitterende shunt dynamisch aangetoond door toepassen van de valsalvamaanuvre tijdens echocardiografie. Door het heffen van de benen tijdens rechterhartkatheterisatie steeg bovendien de RAP als teken van rechteratriumuitstroomobstructie. Ten slotte toonde een dynamische MRI compressie van de rechterventrikel tijdens het verhogen van de intra-abdominale druk. De intermitterende shunt verklaart ook de positie-afhankelijke dyspneu bij onze patiënten. Vooral tijdens vooroverbuigen en bij liggen op de rechterzij of rug comprimeert het diafragma de rechterventrikel met een shunt als gevolg.

Volgens de literatuur komt een PFO regelmatig voor. Een autopsiestudie van 965 gezonde harten beschreef een incidentie van 27,3%.<sup>4</sup> Een shunt door een PFO wordt veel minder beschreven. Dit valt mogelijk toe te schrijven aan het intermitterende karakter. In rust zijn de hemodynamische parameters vaak normaal, zodat een shunt bij verhogen van de intra-abdominale druk makkelijk over het hoofd kan worden gezien. Sun et al. constateerden daarentegen een shuntprevalentie van 45% bij patiënten met pulmonale hypertensie.<sup>5</sup> Deze prevalentie zou ook kunnen gelden voor mensen met rechterventrikelcompressie. Aan de andere kant vormen bovenbeschreven patiënten een geselecteerde populatie doordat het VU medisch centrum een verwijscentrum is.

In 1956 beschreven Schnabel et al. de eerste patiënt met een rechts-links-shunt na een pneumonectomie zonder verhoogde rechtsdrukken.<sup>6,7</sup> Rechtszijdige

pneumonectomie wordt gevolgd door een repositionering van de intrathoracale structuren, wat zelfs na jaren nog kan leiden tot diverse complicaties door compressie van het hart. Volgens anderen zou atriale rek zonder aanwezigheid van een drukgradiënt het onderliggende mechanisme van een shunt door een PFO zijn.<sup>2,8</sup> Dit zou voornamelijk optreden bij mediastinale distorsie waarbij het rechteratrium is weggedraaid, terwijl de vena cava inferior in de oude positie is gefixeerd. Aigner et al. beschreven hemodynamische veranderingen veroorzaakt door een shunt door een PFO bij de combinatie van een veranderde anatomische positie van het linkeratrium en een verhoogde PAP.<sup>9</sup> Onze patiënten hadden echter een normale PAP. Bovendien is pulmonale hypertensie zeldzaam onder patiënten met een pneumonectomie. Daarom was pulmonale hypertensie niet de oorzaak van dyspneu bij deze patiënten.

### Conclusie

Dyspneu op basis van een rechts-links-shunt door een PFO door rechterventrikelcompressie is een zeldzame langetermijncomplicatie van een pneumonectomie. Het kan optreden binnen een jaar na pneumonectomie, maar ook na meer dan 10 jaar. Door onbekendheid met deze complicatie wordt de diagnose meestal niet of laat gesteld. In onze serie ontstond de rechts-links-shunt door een PFO doordat een hoogstaand diafragma de rechterventrikel comprimeerde, met als gevolg een uitstroombeperking van het rechteratrium. Er was geen sprake van pulmonale hypertensie. De dyspneu werd effectief opgeheven door reven van het rechterdiafragma.

Dit artikel is eerder gepubliceerd in *European Respiratory Society Journals Ltd.*: Welvaart WN, Becker A, Marcus JT, Vonk-Noorder-

graaf A, Oosterhuis JW, Paul MA. Unusual treatment of patent foramen ovale after pneumonectomy. *Eur Resp J* 2010;35:929-31.

## Referenties

1. Bellato V, Brusa S, Balazova J, Marescotti S, De Caria D, Bordone G. Platypnea-orthodeoxia syndrome in interatrial right to left shunt postpneumonectomy. *Minerva Anestesiol* 2008;74:271-5.
2. Marini C, Miniati M, Ambrosino N, Formichi B, Tonelli L, Di Ricco G, et al. Dyspnoea and hypoxaemia after lung surgery: the role of interatrial right-to-left shunt. *Eur Respir J* 2006; 28:174-81.
3. Godart F, Porte HL, Rey C, Lablanche JM, Wurtz A. Post-pneumonectomy interatrial right-to-left shunt: successful percutaneous treatment. *Ann Thorac Surg* 1997;64:834-6.
4. Hagen PT, Scholtz DG, Edwards WD. Incidence and size of patent foramen ovale during the first 10 decades of life: an autopsy study of 965 normal hearts. *Mayo clin Proc* 1984; 59:17-20.
5. X Sun, JE Hansen, RJ Oudiz, K Wasserman. Gas exchange detection of exercise-induced right-to-left shunt in patients with primary pulmonary hypertension. *Circulation* 2002;105: 54-60
6. Schnabel TG, Ratto O, Kirby CK, Johnson J, Comroe JH. Postural cyanosis and angina pectoris following pneumonectomy: relief by closure of an interatrial septum defect. *J Thorac Surg* 1956;32:246-50.
7. Zueger O, Solèr M, Stulz P, Jacob A, Perruchoud AP. Dyspnea after pneumonectomy: the result of an atrial septal defect. *Ann Thorac Surg* 1997;63:1451-2.
8. Bakris NC, Siddiqi AJ, Fraser CD, Mehta AC. Right-to-left interatrial shunt after pneumonectomy. *Ann Thorac Surg* 1997;63:198-201.
9. Aigner C, Lang G, Taghavi S, Reza-Hoda MA, Marta G, Baumgartner H, et al. Haemodynamic complications after pneumonectomy: atrial inflow obstruction and reopening of the foramen ovale. *Eur J Cardiothorac Surg* 2008;33:268-71.

Ontvangen 30 november 2009, geaccepteerd 31 mei 2010.

## Correspondentieadres

Mw. dr. A. Becker, longarts  
Dhr. dr. J.T. Marcus, universitair hoofddocent fysica  
Dhr. dr. J.W.A. Oosterhuis, chirurg  
Dhr. dr. M.A. Paul, chirurg  
Dhr. dr. A. Vonk-Noordegraaf, longarts

VU medisch centrum  
Afdeling Longziekten  
De Boelelaan 1117  
1081 HV Amsterdam  
Tel.: 020 444 47 82  
E-mailadres: a.becker@vumc.nl

Dhr. drs. W.N. Welvaart, chirurg

Rivierenziekenhuis, Tiel

Correspondentie graag richten aan de eerste auteur

Belangenconflict: geen gemeld.  
Financiële ondersteuning: geen gemeld.