



*Azienda Ospedaliera Nazionale
SS. Antonio e Biagio e Cesare Arrigo
Alessandria*

Working Paper of Public Health

Nr. 20/2012



La serie di *Working Paper of Public Health* (WP) dell'Azienda Ospedaliera di Alessandria è una pubblicazione *online, progressiva e multi disciplinare* in *Public Health* (ISSN: 2279-9761). Vi rientrano pertanto sia contributi di medicina ed epidemiologia, sia contributi di economia sanitaria e management, etica e diritto. Rientra nella politica aziendale tutto quello che può proteggere e migliorare la salute della comunità attraverso l'educazione e la promozione di stili di vita, così come la prevenzione di malattie ed infezioni, nonché il miglioramento dell'assistenza (sia medica sia infermieristica) e della cura del paziente. Si prefigge quindi l'obiettivo scientifico di migliorare lo stato di salute degli individui e/o pazienti, sia attraverso la prevenzione di quanto potrebbe condizionarla sia mediante l'assistenza medica e/o infermieristica finalizzata al ripristino della stessa. Gli articoli pubblicati impegnano esclusivamente gli autori, le opinioni espresse non implicano alcuna responsabilità da parte dell'Azienda Ospedaliera "SS. Antonio e Biagio e Cesare Arrigo" di Alessandria.

Co-Editors:

Dr. Antonio Maconi (S.S.A. Sviluppo e Promozione Scientifica)

Dr. Ennio Piantato (S.O.C. di Psichiatria)

Responsabile scientifico:

Dr. Antonio Maconi

telefono: +39.0131.206818

email: amaconi@ospedale.al.it

Segreteria:

Roberto Ippoliti, Ph.D.

telefono: +39.0131.206819

email: rippoliti@ospedale.al.it

Norme editoriali:

Le pubblicazioni potranno essere sia in lingua italiana sia in lingua inglese, a discrezione dell'autore. Sarà garantita la sottomissione di manoscritti a tutti coloro che desiderano pubblicare un proprio lavoro scientifico nella serie di WP dell'Azienda Ospedaliera di Alessandria, purché rientrino nelle linee guida editoriali. Il Responsabile Scientifico di redazione verificherà che gli articoli sottomessi rispondano ai criteri editoriali richiesti. Nel caso in cui lo si ritenga necessario, lo stesso Responsabile valuterà l'opportunità o meno di una revisione a studiosi o ad altri esperti, che potrebbero o meno aver già espresso la loro disponibilità ad essere revisori per il WP (i.e. *peer review*). L'utilizzo del *peer review* costringerà gli autori ad adeguarsi ai migliori *standard* di qualità della loro disciplina, così come ai requisiti specifici del WP. Con questo approccio, si sottopone il lavoro o le idee di un autore allo scrutinio di uno o più esperti del medesimo settore. Ognuno di questi esperti fornirà una propria valutazione, includendo anche suggerimenti per l'eventuale miglioramento, all'autore, così come una raccomandazione esplicita al Responsabile Scientifico su cosa fare del manoscritto (i.e. *accepted* o *rejected*).

Al fine di rispettare criteri di scientificità nel lavoro proposto, la revisione sarà anonima, così come l'articolo revisionato (i.e. *double blinded*).

Nel dettaglio, le norme a cui gli autori devono attenersi sono le seguenti:

- I manoscritti devono essere inviati alla Segreteria esclusivamente in formato elettronico all'indirizzo e-mail dedicato (i.e. rippoliti@ospedale.al.it);
- A discrezione degli autori, gli articoli possono essere in lingua italiana o inglese. Nel caso in cui il manoscritto è in lingua italiana, è possibile accompagnare il testo con due riassunti: uno in inglese ed uno in italiano, così come il titolo;
- Ogni articolo deve indicare, se applicabile, i codici di classificazione JEL (scaricabili al sito: http://www.econlit.org/subject_descriptors.html) e le Keywords, nonché il tipo di articolo (i.e. Original Articles, Brief Reports oppure Research Reviews);
- L'abstract è il riassunto dell'articolo proposto, pertanto dovrà indicare chiaramente: Obiettivi; Metodologia; Risultati; Conclusioni;
- Gli articoli dovrebbero rispettare i seguenti formati: *Original Articles* (4000 parole max., abstract 180 parole max., 40 references max.); *Brief Reports* (2000 parole max., abstract 120 parole max., 20 references max., 2 tabelle o figure) oppure *Research Reviews* (3500-5000 parole, fino a 60 references e 6 tabelle e figure);
- I testi vanno inviati in formato Word (Times New Roman, 12, interlinea 1.5). Le note, che vanno battute in apice, non possono contenere esclusivamente riferimenti bibliografici. Inoltre, la numerazione deve essere progressiva;
- I riferimenti bibliografici vanno inseriti nel testo riportando il cognome dell'Autore e l'anno di pubblicazione (e.g. Calabresi, 1969). Nel caso di più Autori, indicare nel testo il cognome del primo aggiungendo *et al*; tutti gli altri Autori verranno citati nei riferimenti bibliografici alla fine del testo.
- I riferimenti bibliografici vanno elencati alla fine del testo in ordine alfabetico (e cronologico per più opere dello stesso Autore).

Diritto di critica:

Eventuali osservazioni e suggerimenti a quanto pubblicato, dopo opportuna valutazione di attinenza, sarà trasmessa agli autori e pubblicata *on line* in apposita sezione ad essa dedicata.

Questa iniziativa assume importanza nel confronto scientifico poiché stimola la dialettica e arricchisce il dibattito su temi d'interesse. Ciascun professionista avrà il diritto di sostenere, con argomentazioni, la validità delle proprie osservazioni rispetto ai lavori pubblicati sui Working Paper of Public Health.

Nel sottomettere un manoscritto alla segreteria di redazione, l'autore accetta tutte le norme qui indicate.



Title: Dieulafoy's disease of the bronchus: a possible mistake

Authors: Barisione E., Ravera S., Ferretti G.*, Salio M.;¹

Type: Brief Report

Keywords: massive hemoptysis; vascular lesion; Dieulafoy's disease;

Abstract

We present a case of a 57 year old woman who suffered from massive hemoptysis; she was sent to us for a suspect neoforment lesion. We assumed it might be Dieulafoy's disease and proceeded with an imaging study that confirmed the diagnosis; after embolization, the patient no longer showed signs of bleeding. In brief, we concluded that whenever there is a suspect Dieulafoy's disease, the biopsy has to be avoided.

Background

Dieulafoy's disease of the bronchus is supposedly very rare. In fact only few cases are reported in literature [4; 8]. This condition should be clinically suspected in heavy smokers with recurring and unexplained episodes of massive hemoptysis. The bleeding can occur immediately after the biopsy and/or after an interval of up to 12 days. The diagnosis can be made through imaging. Angiographic images document that this vascular malformation is based on a left-to-right shunt, with a bronchial artery draining into a pulmonary artery. Endobronchial ultrasound may be helpful in detecting the vascular nature of the lesion [1].

Case report

¹ Azienda Ospedaliera "SS. Antonio e Biagio e C. Arrigo" di Alessandria;

* Corresponding author
E-mail: gferretti@ospedale.al.it;

A 57 year old woman, non smoker, non atopic, was sent to us so we could study a neoformant lesion at the beginning of the superior right bronchus (Figure 1). She had been admitted to another hospital in February 2012 after suffering from seven episodes of massive hemoptysis. At the bronchoscopy there was no blood in the bronchial tree, but a little lesion with normal mucosa was present in the superior bronchus. The biopsy was followed by a massive hemoptysis episode that stopped only after 4 doses of tranxamic acid 5ml/500mg. During the emergency the patient had a hypotensive crisis, so only after the bleeding ceased she was transferred to the intensive care unit for monitoring of the hemodynamic functions. Finally, one hour later, a bronchoscopy was performed confirming the bleeding had stopped. In March a CT/PET was practiced and proved negative for hypercaptations. The histological evidence of the biopsy was normal bronchial mucosa with conserved structure, so this report was considered negative for neoplastic lesion. When she arrived at our hospital at the end of March, her doctors suggested a biopsy to be carried out with a rigid bronchoscope, which is safer in case of bleeding. However, after taking view of the histological description and visual image of the previous bronchoscopy we decided to use a flexible bronchoscopy in the presence of an MD anaesthesiologist. We found a lesion at the beginning of the medium bronchus (Figure 2); it was about 1-2 mm, raised from the surface with a white cap and covered form, apparently normal mucosa, but no lesion in the right upper bronchus, probably because this lesion had disappeared after the previous biopsy. Suspecting Dieulafoy's disease, we didn't carry out a biopsy of the lesion and proceeded to an x-ray study. The arteriography showed convoluted and ectatic bronchial vascular structures, particularly around and behind the trachea and around the right bronchus. (Figure 3). An embolization of the right bronchial artery and in particular of the common tract of the intercostal bronchial trunk was then performed using three 5mm spirals (Figure 4).

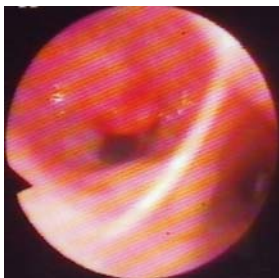


Figure 1: lesion at the beginning of superior right bronchus

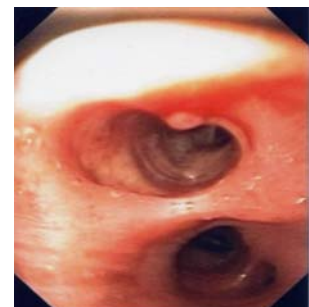


Figure 2: lesion at the beginning of medium bronchus

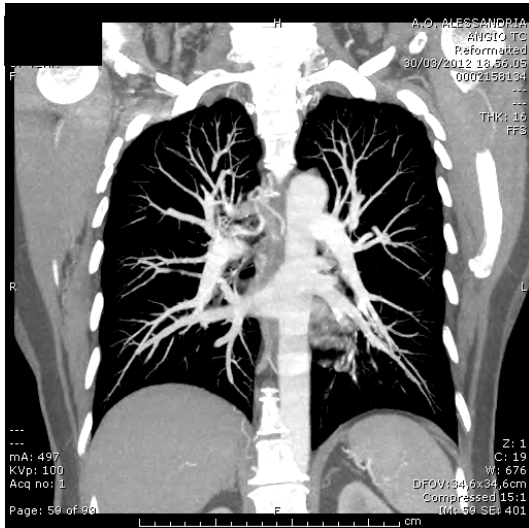


Figure 3: Arteriography



Figure 4

 Spiral in the right bronchial artery, [A: X-ray B: CT]

Discussion

Dieulafoy's disease is an extremely rare vascular anomaly, characterized by the presence of a dysplastic artery in the sub-mucosa. At present, there are few proven cases reported in literature [2-3-4]. The pathogenesis of Dieulafoy disease remains unclear. It was first reported in the gastrointestinal tract [5]; more recently it has also been described in the respiratory tract [6-7]. While in the gastrointestinal tract the bleeding is often spontaneous but also fatal,

in the bronchial tree, profused bleeding often occurs after a biopsy. However, cases of spontaneous bleeding have also been described [3]. It is still unknown whether the origin of the anomaly is congenital or acquired, but age and/or tobacco use are thought to have an influence on the occurrence of the disease [2]. The trigger factor of the vessel rupture is unknown. Furthermore, the nature of the bleeding vessel remains controversial. Dieulafoy's disease of the bronchus is probably underestimated. Massive hemoptysis is a life threatening condition associated with a mortality rate exceeding 50% in the absence of adequate treatment [8-9]. The characteristics of the lesion are very non-specific, but in the presence of a small (usually < 1 cm), sessile, non pulsating nodular lesion, often with a white cap, and apparently normal mucosa, Dieulafoy's disease should always be taken into consideration. The respiratory epithelium shows focal squamous metaplasia and diffused thickening of the basal membrane. In bronchial Dieulafoy's disease, selective embolization has been suggested as a method for stopping the bleeding [10-11] and only in few cases the patient required surgical resection[12].

Conclusion

In brief, Dieulafoy's disease of the bronchus, is more frequent than we think, so we have to consider the option when we have a patient with recurring massive hemoptysis, which cannot otherwise be explained. The biopsy, in this case, obviously has to be avoided, even when no active bleeding is evident.

Bibliography

1. Gurioli C. *et al.* (2010). Endobronchial ultrasound in Dieulafoy's disease of the bronchus: an additional application of EBUS. *Monaldi Archives for Chest Disease*, 73(4):166-168;
2. Parrot A. *et al.* (2008). Approach to diagnosis and pathological examination in bronchial Dieulafoy disease: a case series. *Respiratory research*, 9:58;
3. Loschhorn C. (2006). Dieulafoy's Disease of the lung: A Potential Disaster for the Bronchoscopist. *Respiration*, 73:562-565;
4. Gharagozloo F. *et al.* (2008). Dieulafoy Lesion of the Bronchus Review of literature and report of 13th case. *J Broncol*, 15(1);
5. Schmulewitz N. *et al.* (2001). Dieulafoy lesions: a review of 6 year experience at a tertiary referral center. *Am J Gastroenterol*, 96(6):1688-1694;
6. Sweerts M *et al.* (1995). Dieulafoy's disease of the bronchus. *Thorax*, 50(6):697-698;



7. Sweerts M, Nicholson AG, Goldstraw P, Corrin B. (1995). Dieulafoy's disease of the bronchus. *Thorax*, 50(6): 697-698;
8. Corey R, Hla KM. (1987). Major and massive hemoptysis: reassessment of conservative management. *Am J Med Sci*, 294(5): 301-309;
9. Sehhat S, Oreizie M, Moinedine K. (1978). Massive pulmonary haemorrhage: surgical approach as choice of treatment . *Ann Thorac Surg*, 25(1): 12-15;
10. Bhatia P, Hendy MS, Li-Kam-Wa E, Bowyer PK (2003). Recurring embolotherapy in Dieulafoy's disease of the bronchus. *Can Respir J*, 10: 331-333;
11. Hope-Gill B, Prathibha BV. (2002). Bronchoscopic and angiographic finding in Dieulafoy's disease of the bronchus. *Hosp Med*, 63:178-179;
12. Savale L. (2007). Cryptogenetic hemoptysis From a benign to a life-threatening pathological vascular condition. *AJRCCM*, 175;