

Tratamiento de fístulas arteriovenosas intradurales dorsales medulares: presentación de dos casos

J.L. Gil-Salú^a, J.A. López-López^a, J.A. Fernández-Roche^b,
A. Rodríguez-Piñero^b, J.R. Espinosa-Quirós^c, F.J. Reche^c

THE TREATMENT OF INTRADURAL ARTERIOVENOUS FISTULAS IN THE SPINE: TWO CASE REPORTS

Summary. Introduction. Spinal dural arteriovenous fistulas (AVFs) frequently cause progressive myelopathy. Although endovascular approaches to spinal cord vascular malformations become an important adjunct or primary treatment of these disorders, surgery can be safely performing in some categories. Case reports. Two males patients presented with progressively myelopathy two months and three years before, were diagnosed by typical MRI findings and spinal selective arteriograms of dorsal AVFs with single feeder of Spetzler's modified classification of spinal cord vascular lesions. After an attempt of embolization following diagnostic angiography in first case, surgical approach for clipping the afferent single feeder was done for both. Conclusions. Early recognition by selective diagnostic spinal angiography in patients with slowly progressive and fluctuating myelopathy, allow us surgery as recommended treatment in AVFs, so can effect a better outcome and often reverse presenting neurologic deficits. [REV NEUROL 2004; 39: 427-30]

Key words. Arteriovenous fistula. Classification. Embolization. Myelopathy. Spinal. Surgery.

INTRODUCCIÓN

Las fístulas arteriovenosas (FAV) intradurales, a pesar de su escasa incidencia, son objeto de interés por la controversia que suscitan en cuanto a su origen, fisiopatología y tratamiento [1]. La hipertensión venosa y consiguiente congestión medular son la causa de la sintomatología, la mayor parte de las veces progresiva y, en ocasiones, de curso fluctuante. Tras la sospecha clínica, el diagnóstico se establece, habitualmente, por resonancia magnética (RM), lo que conduce a la realización de angiografías medulares selectivas.

La morfología y arquitectura detectadas en la angiografía permiten determinar el tipo y subtipo de malformación vascular medular y, en función de ello, establecer la indicación terapéutica más adecuada [2].

Desde las primeras angiografías medulares selectivas en la década de los sesenta [3] hasta la actualidad, distintas clasificaciones han intentado tipificar los hallazgos y correlacionar lo más exactamente posible la nomenclatura empleada con las lesiones descritas [4-6] angiográfica o quirúrgicamente.

Sin embargo, el curso clínico subagudo y a veces fluctuante, que la confunden con otras enfermedades y causas de mielopatía [7,8], y el advenimiento de las técnicas de embolización [9,10], que ha hecho que se confíe en el poder de dicha técnica de forma un tanto indiscriminada, nos obligan a considerar que el tratamiento quirúrgico es todavía el más directo y efectivo en determinados tipos de malformaciones vasculares medulares, como es el caso de las fístulas intradurales de localización posterior o dorsal de la clasificación modificada del Barrow Neurological Institute, realizada por Spetzler et al [6], sean de pedículo único o múltiple.

CASOS CLÍNICOS

Presentamos dos casos clínicos de pacientes con FAV intradurales de localización posterior y pedículo único y las imágenes correspondientes.

Caso 1. Se trata de un varón de 48 años de edad que ingresó en nuestro centro por presentar un cuadro de debilidad progresiva en los miembros inferiores (MMII) que impedía la deambulación y en las últimas horas presentaba retención urinaria. Dicho cuadro clínico se inició casi dos meses antes de su ingreso y, desde tres días antes de su ingreso, el paciente no podía ya deambular de manera autónoma. En la exploración clínica se detectaron como hallazgos patológicos una paraparesia 3/5 global en los MMII, no existía nivel sensitivo de hipoestesia, aunque de forma 'parcheada' se detectaban hipoparestesias en los MMII, trastorno distal de la sensibilidad propioceptiva y ROT ++ global en los MMII, con reflejos cutáneos plantares indiferentes bilateralmente. Portador de sonda urinaria, no se obtiene respuesta en el reflejo bulbocavernoso ni en el esfínter anal. La analítica sanguínea y la radiología simple de columna no aportaron datos de interés. Se practicó una RM de la columna dorsal, en la que se evidenció una hiperintensidad en secuencias T₂ que abarcaba los segmentos raquídeos desde D3 hasta D12, con la presencia de una lesión arrosariada y heterogénea perimedular posterior desde D6 hasta D10 (Fig. 1). La arteriografía medular realizada a las 24 horas de su ingreso evidenció una lesión intradural posterior que se nutría desde un pedículo único de la arteria radicular D6-D7 por el lado izquierdo (Fig. 2). Se realizó, en un segundo tiempo, un intento de embolización, que resultó fallido, por compartir el mismo pedículo de entrada los ramos anteriores a la arteria vertebral anterior y el ramo posterior a la FAV. Una semana después de su ingreso, el paciente se intervino quirúrgicamente mediante laminectomía D6-D10 y apertura dural, y mediante técnica microquirúrgica se pinzó el vaso aferente y se coaguló en todo su trayecto el nido malformativo (Figs. 3, 4 y 5). No presentó complicaciones en el posoperatorio inmediato y a la semana se remitió al Servicio de Rehabilitación, donde, tras tres meses de tratamiento, se ha conseguido reeducar la función vesical y el paciente presenta una paraparesia espástica 4+/5 que le permite caminar con ayuda de soporte.

Caso 2. Paciente de origen saharauí, que refería presentar trastornos en la marcha desde tres años antes y que relacionaba con una caída que presentó entonces. Ocasionalmente, se acompañaba de trastornos sensitivos y problemas de micción. En los dos días anteriores al ingreso presentó un empeoramiento súbito de la clínica. La exploración clínica puso de manifiesto una paraparesia espástica muy grave, con fuerza global en el MID de 0/5 y de 1/5 en el MII, grado de hipoalgesia D10 sensibilidad profunda vibratoria y artrocinética abolida en los tobillos y los pies, ROT +++ en los MMII y Babinski

Recibido: 15.03.04. Aceptado tras revisión externa sin modificaciones: 14.05.04.

^a Servicio de Neurocirugía. ^b Servicio de Radiodiagnóstico. ^c Servicio de Rehabilitación. Hospital Universitario Puerta del Mar. Cádiz, España.

Correspondencia: Dr. J.L. Gil-Salú. Servicio de Neurocirugía. Hospital Universitario Puerta del Mar. Avda. Ana de Vía, 21. E-11009 Cádiz. E-mail: jluis.gil.sspa@juntadeandalucia.es

© 2004, REVISTA DE NEUROLOGÍA



Figura 1. Caso 1: RM de la columna dorsal, que muestra hiperintensidad medular desde D3 hasta D12, secuencias ponderadas en T₂, y una lesión heterogénea y de aspecto arrosariado intradural-extramedular en su cara posterior, que abarca desde D6 hasta D10.



Figura 2. Caso 1: arteriografía medular selectiva que muestra el relleno de la FAV a través de un pedículo único en D6-D7 izquierdo.

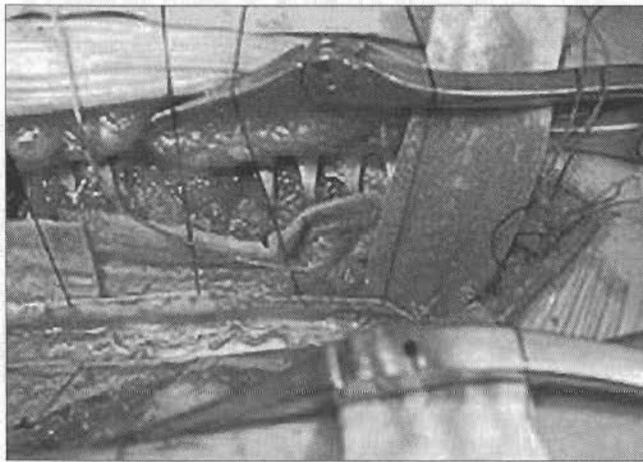


Figura 3. Caso 1: exposición intraoperatoria de la FAV; se observa a la derecha la arteria aferente (D6-D7) y la vena arterializada, que desciende por la cara posterior medular.

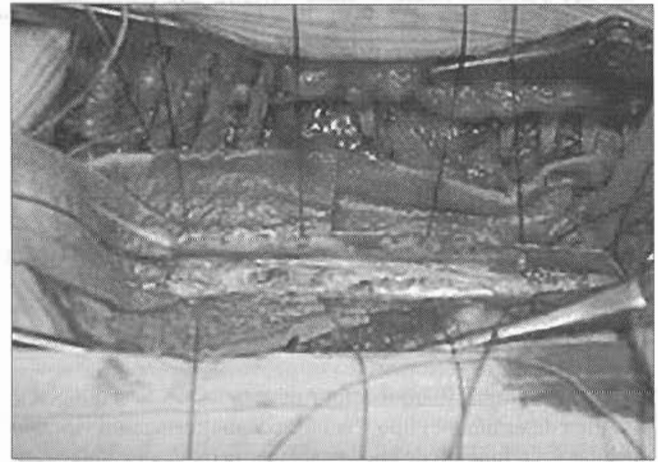


Figura 4. Caso 1: exposición intraoperatoria de la FAV tras el pinzamiento del vaso aferente; la vena adquiere una coloración azulada en todo su trayecto, antes de su coagulación bipolar.

bilateral. Portador de sonda urinaria, también presentaba ausencia de reflejo anal y bulbocavernoso. La RM practicada en otro centro, desde donde nos lo remiten, muestra una lesión arrosariada posterior al cordón medular, ciertamente atrófico, que se extiende desde D8 hasta D11 (Fig. 6). La arteriografía medular evidenció una lesión vascular que se nutría desde un pedículo único izquierdo y alcanzaba desde D9 hasta D12 (Figs. 7 y 8). Se intervino quirúrgicamente practicando una laminectomía D9-L1, apertura dural, identificación del pedículo vascular y coagulación y sección del mismo. A semejanza del caso anterior, al considerar la malformación no extirpable por sus adherencias a la médula subyacente, se procedió a su coagulación *in situ*. Posteriormente, y una vez en el Servicio de Rehabilitación, el paciente llegó a miccionar espontáneamente, la fuerza global en los MMII mejoró hasta 3/5 y, aunque el paciente depende todavía para sus desplazamientos de una silla de ruedas, solicitó el traslado a su país de origen para continuar allí su evolución.

DISCUSIÓN

Aunque existan diversas hipótesis para intentar explicar el curso fluctuante de una mielopatía cuya causa haya sido una FAV intradural, parece lo más aceptado recurrir a la hipertensión venosa y la congestión medular para explicarlo [1]. La mayoría de los pacientes que sufren esta patología son varones en la edad media de la vida, y se localiza en la región torácica o dor-

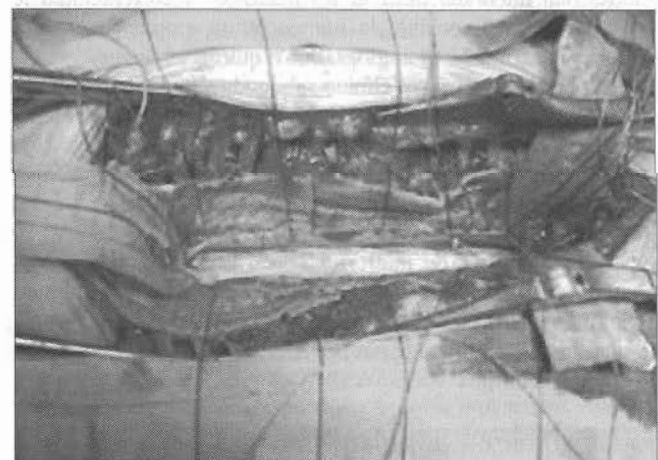


Figura 5. Caso 1: exposición intraoperatoria de la FAV tras su coagulación.

sal media [11]. En el momento del diagnóstico, la mayoría de los pacientes ya presentan problemas miccionales, pérdida de fuerza y trastornos sensitivos en los MMII, debido al retraso en

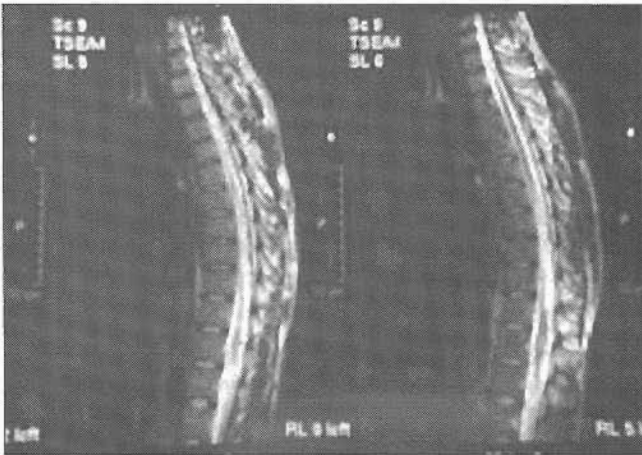


Figura 6. Caso 2: RM en secuencias ponderadas en T_2 , que muestran una atrofia del cordón medular y una lesión de aspecto arrosariado que se sitúa, extramedularmente, en la cara posterior y se extiende desde D8 a D11.



Figura 7. Caso 2: angiografía medular, que muestra una FAV que se nutre desde un pedículo único del lado izquierdo, región D9-D10, en proyección AP.



Figura 8. Caso 2: angiografía medular de iguales características de la figura 6, en proyección lateral.

los tiempos diagnósticos, que llegan a ser de hasta 15 meses de media (intervalos de 1-850 semanas) en algunas series [11,12]. Las características en la RM permiten apreciar en la mayor par-

te de los casos la existencia de patología intramedular, sobre todo en secuencias potenciadas en T_2 , por el efecto de la congestión de origen venoso, y visualizar las señales de vacío de flujo de localización extraxial intradural. Sin embargo, la técnica fundamental es todavía hoy la angiografía selectiva medular, que nos permite apreciar los detalles morfológicos de aferencia al nido, localización anatómica y drenaje venoso con precisión. De hecho, las clasificaciones actuales intentan reproducir las características anatómicas y hallazgos arquitecturales necesarios para adoptar decisiones terapéuticas [3,6,13].

Los dos casos presentados por nosotros cumplen las características clínicas y radiológicas antes señaladas, incluido el retraso en el diagnóstico. En el primero es un retraso en el diagnóstico de sospecha clínico, que no permite acceder con la premura suficiente a la RM como método de elección del diagnóstico radiológico. En el segundo se trata de un caso condicionado por la nacionalidad y lugar de residencia del paciente, que hace que nos llegue en una situación difícilmente recuperable. Hemos de prestar atención particularmente a aquellos casos que, tratándose de varones en la edad media de la vida, presenten una dificultad en la marcha con déficit sensitivos y motores de carácter ascendente o fluctuante, a los que se añaden trastornos esfinterianos [11].

Un aspecto a debatir es también el protocolo terapéutico de las malformaciones vasculares medulares, en general, y de las FAV intradurales, en particular. En nuestro primer paciente existió un retraso en la aplicación del tratamiento oportuno, debido al intento de practicar mediante técnicas endovasculares la exclusión de la malformación vascular. Si bien se propugna de forma general que la evolución de las técnicas endovasculares cambiará el tratamiento de las mismas [13], incluso que las intradurales son las que más se benefician de la embolización, frente a las extradurales/durales [2], hemos de tener en cuenta algunas consideraciones.

La experiencia del equipo humano es un hecho sin duda relevante en cualquier técnica quirúrgica o invasiva. Partiendo de esta consideración, las distintas clasificaciones, que denominan de forma diferente al mismo 'tipo' de malformación vascular, o a la inversa, dan lugar a erróneas equiparaciones. Las FAV intradurales, motivo de los dos casos presentados por nosotros, a pesar de constituir el grupo más frecuente de fístula medular, son las lesiones más controvertidas, y se han incluido en ellas incluso las FAV tipo I [6,14]. De la clasificación modificada por Spetzler et al [6], dentro del grupo de las FAV intradurales dorsales, se distinguen dos tipos: tipo A, con arteria nutricia única o pedículo único, y tipo B, o arterias nutricias múltiples. Casi todas estas FAV se consideran de flujo lento, ya que el drenaje al plexo venoso coronal y al rico sistema venoso dural o epidural, marcan presiones invasivas en ellos de hasta 40 mmHg antes del cierre de la fístula y de 23 mmHg después de su cierre o pinzamiento [15].

La dificultad en la técnica endovascular radica en realizar de forma selectiva la canalización de la arteria radiculomedular y, en las dorsales, de su ramo posterior, para no implicar la conexión con la arteria vertebral anterior. Determinados autores citan esta eventualidad como una contraindicación formal para la embolización [4]. En nuestro primer caso, ésta fue la contraindicación para realizarla y lo que nos condujo en el segundo a indicar la cirugía directamente, sobre todo tras haber observado la buena identificación y resultado con la técnica microquirúrgica de exclusión, pinzamiento, del vaso aferente y la coagulación bipolar del resto del nido malformativo (Figs. 3 y 4).

En casos especiales en los que el diagnóstico clínico y por RM no pueda completarse por angiografía, algunos autores han propuesto la intervención quirúrgica como exploradora y terapéutica. El conocimiento de la fisiopatología y anatomía quirúrgica nos permite explorar intraoperatoriamente la o las arteria/s aferente/s, su disposición respecto a la entrada de la raíz posterior, el nido malformativo consistente en el plexo venoso coronal dilatado y la vena medular arterializada [16].

Incluso en manos expertas, Eskandar et al cifran en un 39% los fracasos del tratamiento endovascular para este tipo de

FAV, mientras que la cirugía siempre consigue la exclusión de la misma [17].

En conclusión, una mielopatía en forma de paraparesia progresiva en un varón de edad media debe obligar a la realización de estudios diagnósticos (RM y angiografía) de forma rápida. En el caso de FAV intradurales dorsales y pedículo único o múltiple, el tratamiento quirúrgico es el de elección, y no debe demorarse tras su diagnóstico. El tratamiento rehabilitador precoz posibilita una recuperación funcional aceptable.

BIBLIOGRAFÍA

- Andersson T, Van Dijk JM, Willinsky RA. Venous manifestations of spinal arteriovenous fistulas. *Neuroimaging Clin N Am* 2003; 13: 73-93.
- Rodesch G, Lasjaunias P. Spinal cord arteriovenous shunts: from imaging to management. *Eur J Radiol* 2003; 46: 221-32.
- Di Chiro G, Doppman JL, Ommaya AK. Selective arteriography of arteriovenous aneurysms of spinal cord. *Radiology* 1967; 88: 1065-77.
- Merland JJ, Reizine D, Laurent A, Khayata MH, Casasco A, Aymard A, et al. Embolization of spinal cord vascular lesions. In Viñuela F, ed. *Interventional neuroradiology: endovascular therapy of the central nervous system*. New York: Raven Press; 1992. p. 153-65.
- Bao Y-H, Ling F. Classification and therapeutic modalities of spinal vascular malformations in 80 patients. *Neurosurgery* 1997; 40: 75-81.
- Spetzler RF, Detwiler PW, Riina HA, Porter RW. Modified classification of spinal cord vascular lesions. *J Neurosurg (Spine)* 2002; 96: 145-56.
- Barontini F, Tonini R. A case of necrotic myelopathy due to a spinal vascular malformation (Foix-Alajouanine's disease). *Schweiz Arch Neurol Neurochir Psychiatr* 1981; 128: 5-12.
- Schiek U, Hassler W. Treatment and outcome of spinal dural arteriovenous fistulas. *Eur Spine J* 2003; 12: 350-5.
- Newton TH, Adams JE. Angiographic demonstration and nonsurgical embolization of spinal cord angioma. *Radiology* 1968; 91: 873-6.
- Djindjian R. Embolization of angiomas of the spinal cord. *Surg Neurol* 1975; 4: 411-20.
- Jellema K, Canta LR, Tijssen CC, Van Rooij WJ, Koudstaal PJ, Van Gijn J. Spinal dural arteriovenous fistulas: clinical features in 80 patients. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2003; 74: 1438-40.
- Aminoff MF, Logue V. The prognosis of patients with spinal vascular malformation. *Brain* 1974; 97: 211-8.
- Caragine LP, Halbach VV, Dowd CF. Vascular myelopathies-vascular malformation of the spinal cord: presentation and endovascular surgical management. *Semin Neurol* 2002; 22: 123-32.
- Barrow DL. Spinal cord vascular lesions. *J Neurosurg (Spine 2)* 2002; 96: 143-4.
- Bederson JB, Spetzler RF. Pathophysiology of tipe I spinal dural arteriovenous malformation. *BNI Q* 1996; 12: 23-32.
- Oldfield EH, Bennet III A, Chen MY, Doppman JL. Successful management of spinal dural arteriovenous fistulas undetected by arteriography. *J Neurosurg (Spine 2)* 2002; 96: 220-9.
- Eskandar EN, Borges LF, Budzik RF, Putman CHM, Ogilvy CHS. Spinal dural arteriovenous fistulas: experience with endovascular and surgical therapy. *J Neurosurg (Spine 2)* 2002; 96: 162-7.

TRATAMIENTO DE FÍSTULAS ARTERIOVENOSAS INTRADURALES DORSALES MEDULARES: PRESENTACIÓN DE DOS CASOS

Resumen. Introducción. Las fístulas arteriovenosas (FAV) durales medulares son causa de mielopatía de carácter progresivo y, a veces, fluctuante. Aunque el tratamiento endovascular de las malformaciones vasculares medulares ha llegado a ser un tratamiento adyuvante, o incluso único, la cirugía debe ser el tratamiento de elección en determinados casos. Casos clínicos. Dos pacientes varones que debutaron con una mielopatía de carácter progresivo desde dos meses y tres años antes, se diagnosticaron por medio de resonancia magnética y arteriografía medular de unas FAV de localización posterior y pedículo único de la clasificación modificada de Spetzler. Tras un intento de embolización en el primer caso, se intervino quirúrgicamente en ambos casos para el pinzamiento del vaso aferente. Conclusiones. El diagnóstico precoz por medio de la angiografía medular selectiva en pacientes con clínica de mielopatía lentamente progresiva y de curso fluctuante nos permite establecer la indicación quirúrgica como tratamiento de elección de las FAV, lo que puede mejorar el pronóstico de nuestros pacientes e incluso revertir los déficits neurológicos presentados. [REV NEUROL 2004; 39: 427-30]

Palabras clave. Cirugía. Clasificación. Embolización. Fístula arteriovenosa. Medular. Mielopatía.

TRATAMENTO DE FÍSTULAS ARTERIOVENOSAS INTRA-DURAIIS DORSAIS ESPINAIS: APRESENTAÇÃO DE DOIS CASOS

Resumo. Introdução. As fístulas arteriovenosas (FAV) durais espinais são causa de uma mielopatia de carácter progressivo e, às vezes, flutuante. Embora o tratamento endovascular das malformações vasculares espinais tenha chegado a ser um tratamento adjuvante, ou inclusivamente único, a cirurgia deve ser o tratamento de eleição em determinados casos. Casos clínicos. Dois doentes do sexo masculino que começaram com uma mielopatia de carácter progressivo desde há 2 meses e 3 anos respectivamente, foi-lhes diagnosticada por meio de ressonância magnética e arteriografia espinal umas FAV de localização posterior e pedículo único da classificação modificada de Spetzler. Após uma tentativa de embolização no primeiro caso, a cirurgia para a clipagem do vaso aferente foi realizada nos dois pacientes apresentados. Conclusões. O diagnóstico precoce por meio da angiografia espinal selectiva em doentes com história clínica de mielopatia lentamente progressiva e de curso flutuante permite-nos estabelecer a indicação cirúrgica como tratamento de eleição das FAV, e pode desta forma melhorar o pronóstico dos nossos doentes e inclusivamente reverter os défices neurológicos apresentados. [REV NEUROL 2004; 39: 427-30]

Palavras chave. Cirurgia. Classificação. Embolização. Espinal. Fístula arteriovenosa. Mielopatia.