

Diagnóstico mielográfico de una fístula arteriovenosa epidural

A. Muñoz, F. Viñuela^a, A. Mesa^b, J.M. García-Moreno^a, J.M. Gata^a, G. Izquierdo^a

Resumen. Introducción. Las fístulas arteriovenosas epidurales son una entidad clínica poco conocida y probablemente más frecuente de lo que se cree, dada la dificultad diagnóstica que conlleva su demostración angiográfica. Caso clínico. Presentamos el caso de un varón de 49 años con una clínica de mielorradiculopatía crónica, con episodios de claudicación medular intermitente, que ilustra la utilidad de la mielografía que en ciertos casos permite resaltar estructuras vasculares que pueden pasar desapercibidas. Conclusión. Una clínica compatible, en un paciente sin otro diagnóstico, debe hacer pensar en esta entidad que si se confirma, utilizando la mielografía y/o la resonancia magnética previo al estudio angiográfico, puede beneficiarse de un tratamiento eficaz por embolización [REV NEUROL 1997; 25: 1203-6].

Palabras clave. Embolización. Fístula arteriovenosa (FAV) epidural. Mielografía. Resonancia magnética.

Summary. Introduction. Epidural arterio-venous fistulae are a little known clinical condition. They are probably commoner than is thought, since diagnosis and angiographic demonstration are difficult. Clinical case. We present the case of a 49 year old man with the clinical features of chronic myelo-radiculopathy with episodes of intermittent medullary claudication. This shows the use of myelography, which in certain cases allows clear detection of vascular structures which might otherwise pass unnoticed. Conclusions. One should think of this condition when compatible features are found and there is no other diagnosis, since if confirmed by myelography and/or magnetic resonance prior to angiographic study, it may benefit from embolization, which is an effective treatment for this [REV NEUROL 1997; 25: 1203-6].

Key words. Embolization. Epidural arteriovenous fistulae (FAV). Magnetic resonance. Myelography.

INTRODUCCIÓN

Las malformaciones arteriovenosas medulares representan un grupo bastante heterogéneo de anomalías vasculares. Los primeros casos descritos fueron los de Hebold [1] y Gaupp [2]. Un siglo después, más de 500 casos han sido recogidos [1-31]. Desde entonces se han desarrollado numerosas clasificaciones atendiendo a distintos criterios. En cualquier caso, se trata de una entidad de difícil diagnóstico dada la diversidad clínica que presenta y que puede llevar a confundirla con otros procesos.

Presentamos un caso clínico que ilustra la utilidad de la mielografía, tanto para el diagnóstico como para el seguimiento posterior de estas malformaciones arteriovenosas.

Destacamos la necesidad de un diagnóstico precoz de estos procesos, sobre todo teniendo en cuenta que se pueden beneficiar de un tratamiento como es la embolización con resultados bastante alentadores.

CASO CLÍNICO

Paciente de 49 años con antecedentes personales de tabaquismo importante desde hace años y traumatismo a nivel coccígeo tras caída desde cierta altura doce años previos al ingreso actual, con recuperación completa sin secuelas.

Desde hace varios años el paciente refiere presentar sensaciones bruscas que describe como 'bocados' lumbares bajos y coccígeos que le limitaban su actividad laboral. Estas sensaciones se acompañaban de pérdida brusca de fuerza en MMII, necesitando varias horas e incluso días para recuperarse.

Recibido: 26.03.97. Recibido en versión revisada: 28.04.97. Aceptado: 28.04.97.

Servicio de Medicina Interna. ^a Servicio de Neurología. ^b Servicio de Radiología. Hospital Universitario Virgen de la Macarena. Sevilla, España.

Correspondencia: Dra. Ángeles Muñoz Pérez. Servicio de Neurología. Hospital Universitario Virgen de la Macarena. Avda. Dr. Fedriani, 3. E-41009 Sevilla.

Agradecimientos. Al Servicio de Neuroradiología, Prof. F. Quintana, del Hospital Marqués de Valdecilla, donde se llevó a cabo con éxito la embolización de la fístula arteriovenosa de nuestro paciente.

© 1997, REVISTA DE NEUROLOGÍA

Hace aproximadamente tres años estos cuadros se intensificaron, apareciendo con una frecuencia de un episodio cada veinte días y acompañándose de sensación de acorchamiento en dichos miembros. Fue entonces cuando decidió consultar a un traumatólogo, siendo diagnosticado de hernia discal con compresión medular secundaria. En el último año y medio se agravó el cuadro de nuevo con empeoramiento progresivo de la debilidad en MMII, así como aumento de la frecuencia y duración de los episodios, llegando a perder la posibilidad de mantener la bipedestación. Ante el diagnóstico previo de hernia discal a nivel de L₅-S₁ con síndrome radicular secundario fue intervenido quirúrgicamente, realizándose una liberación radicular y discotomía a nivel L₅-S₁.

Tras la intervención el paciente no mejoró de forma apreciable, siendo reintervenido seis meses más tarde, momento en que se le realizó una artrodesis vertebral a nivel lumbar. A partir de este momento y tras tratamiento fisioterápico mejoró, logrando deambular con ayuda de bastones.

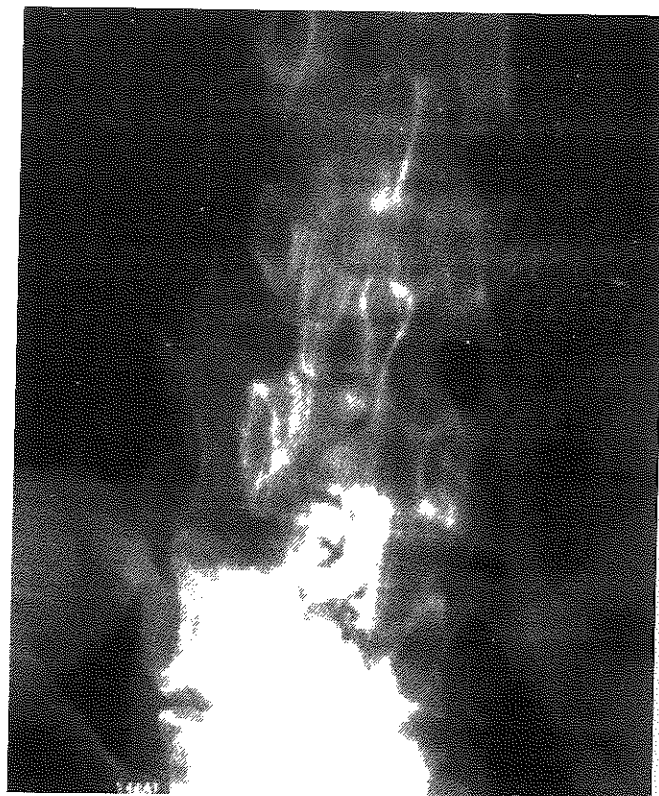
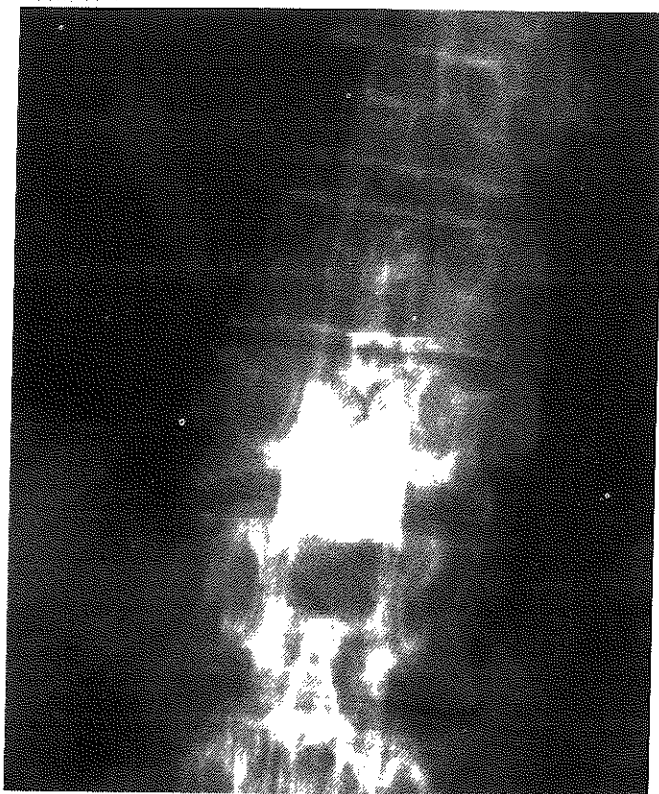
En los últimos cuatro meses previos al ingreso, y tras la suspensión de rehabilitación, vuelve a sufrir un empeoramiento, acompañándose esta vez de mayores alteraciones sensitivas. Llegó a presentar anestesia en silla de montar y trastornos esfinterianos, con dificultad tanto para la micción como para la defecación, así como impotencia que ya había presentado desde hace tres años. Fue entonces cuando se decidió consultar con el Servicio de Neurología.

En la exploración general no se observaron hallazgos patológicos destacables. El paciente estaba consciente, sin alteraciones de las funciones superiores, ni anomalías evidentes de pares craneales. La fuerza en MMSS estaba conservada, sin embargo presentaba una paraparesia en MMII de predominio derecho (0/5 en MID y 2/5 en MII), con discreta atrofia proximal y fasciculaciones. Los ROT estaban abolidos en MMII, los reflejos cutáneo-plantares indiferentes y los cutáneo-abdominales presentes. Asimismo presentaba una anestesia para todas las sensibilidades a partir de L₅ de forma bilateral e hipoestesia desde L₁-L₅, con sensibilidad articular abolida en MMII. La coordinación en MMSS era normal. La bipedestación y marcha eran lógicamente imposibles.

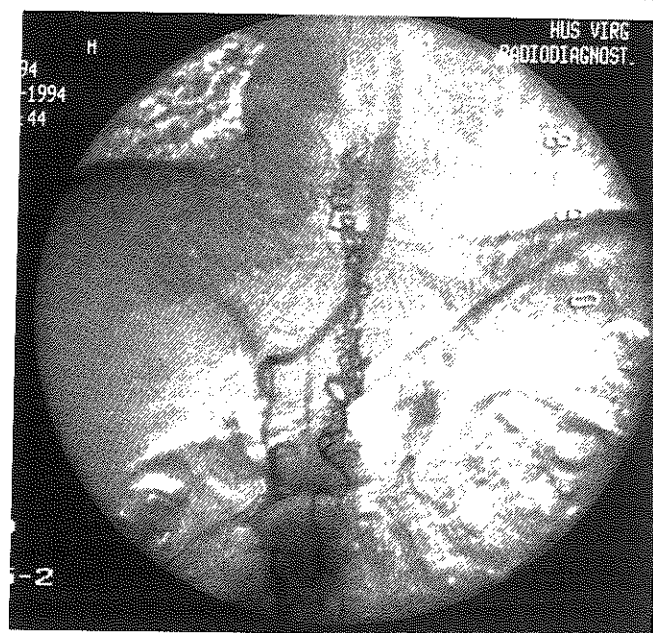
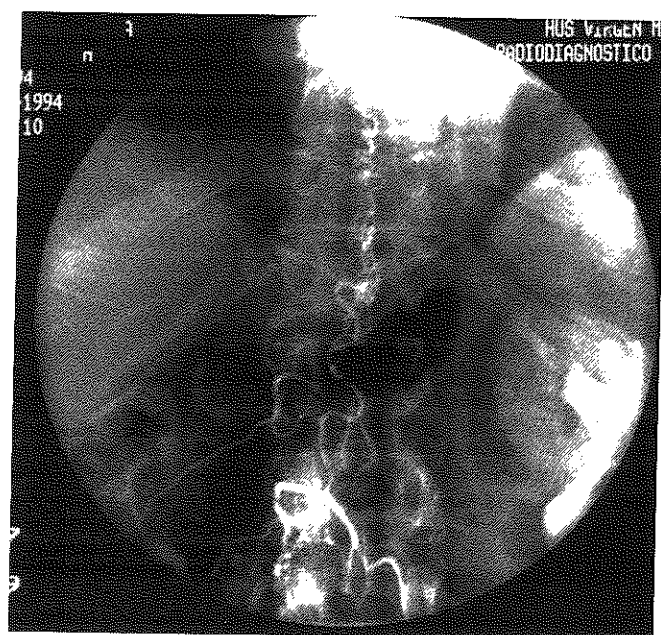
Los datos analíticos que incluían hemograma, VSG, perfil bioquímico y lipídico, serologías, pruebas reumáticas no mostraban alteraciones de interés.

El electrocardiograma y la Rx de tórax no presentaban hallazgos patológicos. En la Rx de columna lumbar se objetivaba un aplastamiento vertebral a nivel de D₁₁ con aspecto de fractura con esclerosis reactiva secundaria, además de estructuras metálicas derivadas de la artrodesis llevada a cabo un año y medio previo al ingreso, y un defecto óseo secundario a la laminectomía en L₅, que impedían la realización de resonancia magnética.

Se le practicó una mielografía donde se visualizaba a nivel superior por encima del cono medular un defecto de repleción intradural de aspecto tu-



Figuras 1a y 1b. Imágenes de TAC-mielografía objetivándose defectos de repleción intratecales, perimedulares de claro aspecto vascular.



Figuras 1c y 1d. Arteriografía medular que confirma la existencia de una fistula arteriovenosa epidural con aporte bimatemérico a nivel lumbar.

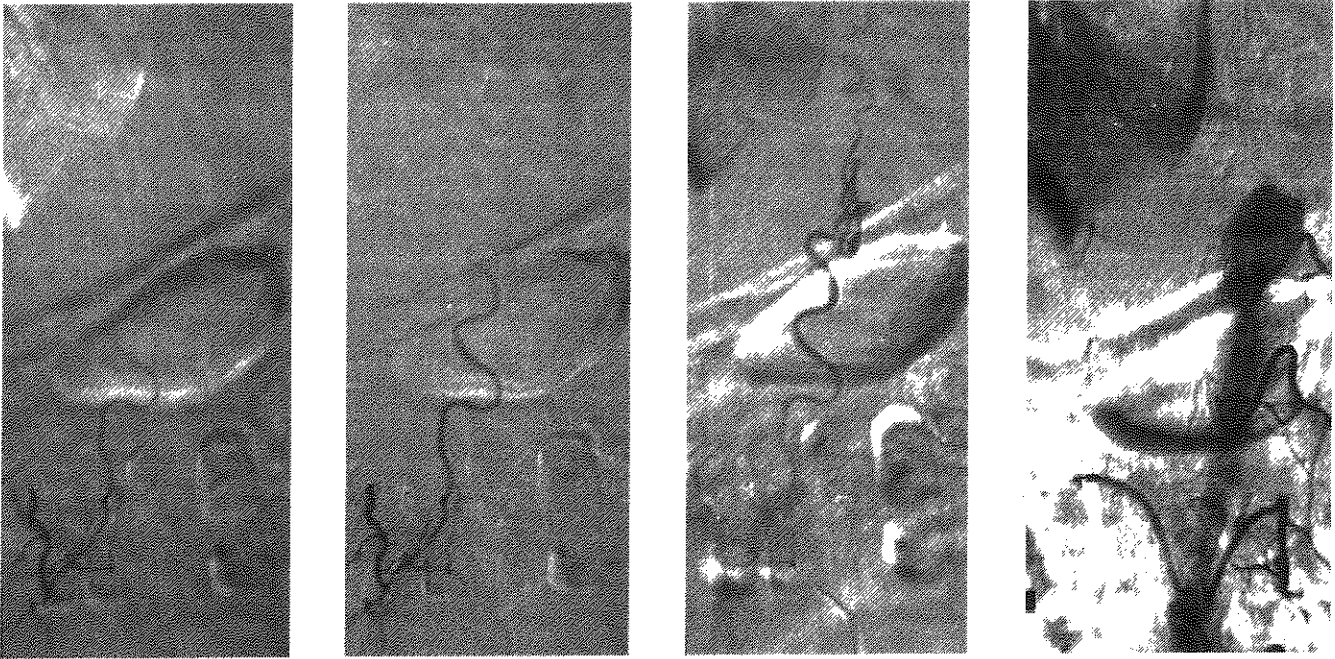
bular, serpinginosa, que se extendía desde niveles inferiores y que se proyectaba sobre todo en la imagen anteroposterior. En la TAC-mielografía demostraba defectos de repleción intratecales, perimedulares de aspecto vascular (Figs. 1a y 1b).

Finalmente fue sometido a una arteriografía medular (Figs. 1c y 1d), confirmándose la existencia de una fistula arteriovenosa epidural con aporte bimatemérico a nivel lumbar.

Ante este diagnóstico consideramos como tratamiento más adecuado la embolización de dicha fistula, a pesar de la larga evolución clínica de la enfermedad. Para ello nos pusimos en contacto con el Servicio de Neurorradiología

del Hospital Marqués de Valdecilla de Santander, que decidió llevar a cabo la intervención. En dicho hospital se procedió al cierre de la fistula arteriovenosa lumbar, bajo control angiográfico (Figs. 2a, 2b, 2c, 2d), mediante cola biológica, sin complicaciones.

A las 48 horas de la intervención, se objetivó una mejoría evidente empezando a movilizar MMII, y a los pocos días comenzó a controlar esfínteres. Posteriormente se prosiguió con tratamiento rehabilitador, consiguiendo en unos 3-4 meses deambular con ayuda de bastones. Cinco meses más tarde se le realizó nuevo control mielográfico visualizándose una disminución clara de las improntas serpinginosas con respecto a la mielografía anterior.



Figuras 2a-2c. Imágenes angiográficas cedidas por el Servicio de Neurorradiología del Hospital Marqués de Valdecilla, minutos previos a la embolización, donde se pone de manifiesto de forma evidente la fístula arteriovenosa epidural. **d.** Imagen angiográfica tras embolización con cola biológica y cierre secundario de la fístula.

DISCUSIÓN

Las malformaciones arteriovenosas medulares desde los primeros casos descritos, hace ya más de un siglo, han tenido distintas clasificaciones atendiendo a diversos criterios (la patogenia, la anatomía, la angiografía). Sin embargo, en 1993, un estudio clínico y arteriográfico de las malformaciones vasculares medulares [3] ha establecido una clasificación de acuerdo con los siguientes parámetros: su lugar de asiento (medular, perimedular, dural, epidural, vertebral, paravertebral), su angioarquitectura (fístula arteriovenosa o malformación arteriovenosa), su hemodinámica (lenta o rápida). En función de estos parámetros se han establecido distintos tipos de malformaciones vasculares vertebromedulares con un gran interés tanto evolutivo como terapéutico [11].

Antes de realizar cualquiera de estas clasificaciones es absolutamente indispensable, y al mismo tiempo difícil, realizar un diagnóstico correcto. De hecho, en nuestro caso, el paciente presentaba una historia de mielorradiculopatía de años de evolución, con episodios de claudicación medular intermitente frecuentes, y fue diagnosticado tardíamente.

Los síntomas y signos de estas malformaciones pueden ser de radiculopatía, mielopatía o debutar con cualquiera de las complicaciones secundarias (hipertensión venosa, compresión medular, trombosis, hemorragia intramedular o subaracnoidea, aracnoiditis secundaria a sangrado subaracnoideo, o combinación de éstos). De hecho, en 1926 Foix y Alajouanine [4] describieron dos casos de mielopatía subaguda a las que se dio el nombre de síndrome de Foix-Alajouanine. El examen post mortem puso de manifiesto la presencia de trombosis medular extensa con áreas de necrosis, así como vasos anormalmente dilatados y tortuosos, que no eran más que una trombosis masiva en el contexto de una malformación arteriovenosa. Más tarde estos hallazgos fueron corroborados por Lhermitte et al [5] y otros autores [6-9].

Los mecanismos fisiopatológicos que intervienen en este proceso son muy discutidos, sin embargo se piensa que el mecanismo

probablemente responsable de los disturbios neurológicos es la hipoxia secundaria a la hipertensión venosa [16]. Dicho mecanismo ya fue apuntado en 1974 por Aminoff et al [22] y por Kendall et al [27] en 1977.

La presentación clínica puede ser aguda (15-20%), intermitente (30-40%) o crónica (30-40%), sin embargo dicha presentación no es específica de estas entidades, y requiere realizar un diagnóstico diferencial basado en una historia clínica exhaustiva con ayuda de una serie de técnicas complementarias.

La malformación más común es la fístula arteriovenosa extradural que afecta sobre todo a adultos mayores de cuarenta años. Presenta una sintomatología generalmente progresiva y se localiza preferentemente en regiones torácicas bajas y lumbares, sin excluir cualquier otra localización [21]. Si bien no es frecuente en niños, han sido descritos en la literatura varios de estos casos, como el descrito por O'Brien et al [12] de un niño de 7 años con una fístula arteriovenosa intradural cuya forma de presentación fue un síndrome de Brown-Sequard.

El examen del LCR puede ser normal, aunque generalmente presenta un aumento moderado de proteínas sin incremento significativo de la celularidad. En ocasiones puede revelar evidencia de hemorragia. En ningún caso el estudio del LCR determina la exclusión o el diagnóstico de malformaciones vasculares.

En el diagnóstico se incluyen técnicas no invasivas tales como la mielografía, TAC-mielografía y resonancia magnética. Se le está dando especial importancia a la RM como técnica que se puede realizar, al menos inicialmente [17], sobre todo tras la inyección de contraste (gadolinio DTPA), como lo describen Burkard Terwey et al [13] en una revisión de once casos de fístulas arteriovenosas espinales durales. La RM permite detectar las distintas estructuras vasculares y simultáneamente excluye otras causas de disfunción de médula espinal. Sin embargo, puede dar falsos negativos en algunos casos y una RM normal no excluye el diagnóstico. De forma que destacamos la utilidad en el diagnós-

tico de esta patología de técnicas convencionales, quizás algo olvidadas, como la mielografía. La mielografía con productos de contraste hidrosolubles y en excelentes condiciones técnicas permite estudiar las principales venas de drenaje de la médula, pudiendo resaltar estructuras vasculares que en ocasiones y con otras técnicas pueden pasar desapercibidas. En nuestro caso ésta resultó decisiva dada la dificultad técnica que entrañaban pruebas como la RM, por la presencia de estructuras metálicas tras artrodesis llevada a cabo dos años antes.

Otra de las técnicas no invasivas que se debe tener en cuenta en adelante, tanto para el diagnóstico como para el posterior seguimiento, es la angiorrisonancia, como apuntan Gerbert et al [18] en una revisión de doce casos de malformaciones vasculares a los que se les practicó estudios de angiorrisonancia.

Finalmente, la arteriografía medular es esencial para el diagnóstico de cualquiera de los distintos tipos de malformaciones vasculares y permite demostrar el origen, el número de vasos, el tipo, lugar y extensión de la malformación, así como el drenaje venoso.

Respecto al tratamiento, se incluyen distintas técnicas, más o menos agresivas, como la ligadura proximal, la escisión, la embolización bajo control angiográfico o la combinación de éstas. Cada vez está cobrando mayor importancia la radiología intervencio-

nista, siendo considerada el tratamiento de elección en gran parte de estas malformaciones vasculares con resultados francamente alentadores. En nuestro caso tras la embolización el paciente mejoró sensiblemente a pesar del tiempo transcurrido desde el inicio de la sintomatología, si tenemos en cuenta que los resultados son mucho más optimistas cuanto más precoz es el tratamiento. Otro aspecto que se discute actualmente es el tipo de material que se puede utilizar en la embolización; según Nichols et al [19] resulta más efectivo, y con menos riesgo de reperfusión, el uso de un líquido adhesivo que el de partículas polimerizantes.

Esta patología es probablemente más frecuente de lo que se piensa ya que muchos casos quedan sin diagnosticar y es preciso tenerla en cuenta ante cualquier mielorradiculopatía, sobre todo si ésta es crónica, con episodios de claudicación medular, y si afecta a pacientes de edad media.

Destacamos la utilidad de técnicas convencionales como la mielografía, quizás hoy algo olvidadas, para el diagnóstico de estas malformaciones vasculares, así como para el posterior seguimiento.

Por último, destacamos el auge de la radiología intervencionista en el tratamiento de estas enfermedades con resultados francamente alentadores tanto más cuanto más precoz sea la intervención.

BIBLIOGRAFÍA

1. Hebold O. Aneurysmen der kleinsten rücken marksgesasse. Arch Psychiatr Nervenkr 1885; 16: 813-23.
2. Gaupp J. Hamorrhoiden der pia matter spinalis im gebiet des lendenmarks. Beith Pathol 1888; 2: 516-8.
3. Brunereau I. Classification et corrélations radio-cliniques des malformations vasculaires médullaires. A propos de 151 observations (these). Paris VII, 1993.
4. Foix C, Alajouanine T. La myélite nécrotique subaiguë. Rev Neurol (Paris) 1926; 2: 1-42.
5. Lhermitte J, Fribourg-Blanc A, Kyriaco N. La gliose angiohypertrophique de la moelle épinière. Rev Neurol (Paris) 1931; 2: 37-53.
6. Flament J, Vicette AN, Coars C, et al. Angiodysgenetic myelomalacia (Foix-Alajouanine) and its differentiation from spinal necrosis on intramedullary angiomas. Rev Neurol 1960; 103: 22-9.
7. Pia HW, Vogelsang H. Diagnose und therapie spinaler angiome. Dtsch Z Nervenheilk 1965; 187: 74-96.
8. Wirth FP Jr, Post KD, di Chiro G, et al. Foix-Alajouanine disease. Spontaneous thrombosis of a spinal cord arteriovenous malformation: a case report. Neurology 1970; 20: 1114-8.
9. Wyburn-Mason R. The vascular abnormalities and tumours of the spinal cord and its membrane. London: Henry Kimpton; 1943.
10. Criscuolo GR, Old Field EH, Doppman JL. Reversible acute and subacute myelopathy in patients with dural arteriovenous fistulas. J Neurosurg 1989; 70: 354-9.
11. Herbreteau D, Lasasco A, Hondart E, et al. Malformations vasculaires vertébro-médullaires: cliniques, imagerie, traitement. Encycl Med Chir (Paris). Neurologie 1995; 17-067-C-10.
12. O'Brien DP, Dias PS, Farrell MA, et al. Brown-Sequard syndrome and an intradural arteriovenous fistula in a child. Br J Neurosurg 1994; 8: 611-5.
13. Burckard Terwey, Hartmut Becker, Thron AK, Vahlechick G. Gadolinium-DTPA enhanced MR imaging of spinal dural arteriovenous fistula. J Comput Assist Tomogr 1989; 13: 30-7.
14. Barrow DI, Colohan Austin RT, Dawson R. Intradural perimedullary arteriovenous fistulas (type IV spinal cord arteriovenous malformations). J Neurosurg 1994; 81: 221-9.
15. Doug-IK Kim, Insup Choi, Berenstein A. A sacral dural arteriovenous fistula presenting with an intermittent myelopathy aggravated by menstruation. J Neurosurg 1991; 75: 947-9.
16. Sghirlanzoni A, Gemma M, Pareyson D, Cimino C, Boiardi A. Spinal arteriovenous fistula. A possible cause of paraparesis after epidural anaesthesia. Anaesthesia 1989; 44: 831-3.
17. Sener RN, Larsson EM, Bacher R, Jinkins JR. MRI of intradural spinal arteriovenous fistula associated with ischemia and infarction of the cord. Clin Imaging 1993; 17: 73-6.
18. Gelbert FR, Guichard JP, Klaus L, Mourier KL, et al. Phase-contrast MR angiography of vascular malformations of the spinal cord at 0.5 T₁. SMRI 1992; 2: 631-6.
19. Nichols DA, Rüfenacht D, Jack CR Jr, Forbes GS. Embolization of spinal dural arteriovenous fistula with polyvinyl alcohol particles: experiences in 14 patients. Am J Neuroradiol 1992; 76: 615-22.
20. Willinsky R, Terbrugge K, Montaner W, Wallace MC, Gentili F. Spinal epidural arteriovenous fistula: arterial and venous approaches to embolization. Am J Neuroradiol 1993; 14: 812-7.
21. Partington M, Rüfenacht D, Marsh R, Piegras D. Cranial and sacral dural arteriovenous fistulas as a cause of myelopathy. J Neurosurg 1992; 76: 615-22.
22. Aminoff MJ, Barnard RO, Logue V. The pathophysiology of spinal vascular malformations. J Neurol Sci 1974; 23: 255-63.
23. Mahagne MH, Rogopoulos A, Paquis PH, et al. Fistules artério-veineuses dures intracrâniennes a drainage veineux médullaires. Rev Neurol (Paris) 1992; 12: 789-92.
24. Friedman D, Flanders A, Tartaglino L. Vascular neoplasm and malformations, ischemia and hemorrhage affecting the spinal cord: MR imaging finding. AJR 1994; 162: 685-92.
25. Van Halbach V, Randall T, Higashida C, Dow F, et al. Treatment of giant intradural (perimedullary) arteriovenous fistulas. Neurosurgery 1993; 33: 972-80.
26. Gemma M, Bricchi M, Grisoli M, et al. Neurologic symptoms after epidural anaesthesia. Report of three cases. Acta Anaesthesiol Scand 1994; 38: 742-3.
27. Kendall B, Logue V. Spinal epidural angiomatous malformations draining into intratecal veins. Neuroradiology 1977; 13: 181-9.
28. Hurst RW, Kenyon LC, Lavi E, Raps EC, Marcotte P. Spinal dural arteriovenous fistula: the pathology of venous hypertensive myelopathy. Neurology 1995; 45: 1309-12.
29. Gobin P, Rogopoulos A, Aymard A, et al. Endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistula with spinal perimedullary venous drainage. J Neurosurg 1992; 77: 718-28.
30. Teng MMH, Chang T, Huang CI, et al. Percutaneous reposition of dislodged coils in the treatment of a vertebral arteriovenous fistula-with CT follow-up. Neuroradiology 1991; 33: 195-9.
31. Chaloupka JC, Gobin P, Gugliemi G, et al. Two concurrent spinal dural arteriovenous fistulae in a patient with rapidly progressive myelopathy. A case report. Angiology 1995; 46: 246-57.