



Vol. 11 Núm. 2
May.-Ago. 2024
pp 94-98

Desafiando la norma: un caso pediátrico de fístula arteriovenosa dural espinal

Challenging the norm: a pediatric case of spinal dural arteriovenous fistula

Missael de Jesús Salcedo-Hernández,^{*,‡}
Alexis Oziel Martínez-Nava,^{*,‡} Edgar Fernando Acosta-Gómez,^{*,‡}
Yonatan Emmanuel Cobián-Estrada,^{*,‡} Ana Luz Rubio-Werekeitzen[‡]

RESUMEN

Las Fístulas Arteriovenosas Durales Espinales (FADe) son conexiones anormales entre arterias y venas espinales, causando compresión de estructuras circundantes y problemas neurológicos. Se realiza la presentación del caso clínico de un adolescente de 14 años con síntomas de mielopatía y radiculopatía tras un incidente de fútbol, diagnosticado con FADe a nivel de T5 tras evidencia en resonancia magnética y angiografía, el paciente mostró un síndrome de compresión medular incompleto con niveles motores y sensitivos afectados. Este caso destaca la necesidad de evaluación y manejo rápidos de la compresión medular en pediatría, la importancia de la rehabilitación y la escasez de literatura médica sobre FADe en niños.

Palabras clave: fístula arteriovenosa dural espinal, vascular, espinal, angiografía, pediátrico.

ABSTRACT

Spinal Dural Arteriovenous Fistulas (SDAVF) are abnormal connections between spinal arteries and veins, causing compression of surrounding structures and neurological issues. This clinical case presents a 14-year-old adolescent with symptoms of myelopathy and radiculopathy following a football incident, diagnosed with SDAVF at the T5 level after evidence from magnetic resonance imaging and angiography. The patient exhibited an incomplete spinal cord compression syndrome with affected motor and sensory levels. This case underscores the necessity for prompt evaluation and management of spinal compression in pediatrics, the importance of rehabilitation, and the scarcity of medical literature on SDAVF in children.

Keywords: spinal dural arteriovenous fistula, vascular, spinal, angiography, pediatric.

Abreviatura:

FADe = fístula arteriovenosa dural espinal.

INTRODUCCIÓN

La fístula arteriovenosa dural espinal (FADe) es una rara patología vascular que

se caracteriza por una conexión anormal directa entre las arterias y las venas extra o intradural, sin la intervención de un lecho capilar. Esta condición puede resultar en hipertensión y dilatación venosa, por tal motivo causa compresión de las estructuras circundantes, robo vascular o hemorragia.

Citar como: Salcedo-Hernández MJ, Martínez-Nava AO, Acosta-Gómez EF, Cobián-Estrada YE, Rubio-Werekeitzen AL. Desafiando la norma: un caso pediátrico de fístula arteriovenosa dural espinal. Salud Jalisco. 2024; 11 (2): 94-98. <https://dx.doi.org/10.35366/115689>

* Servicio de Neurocirugía, Hospital Civil Nuevo de Guadalajara "Dr. Juan I. Menchaca".
‡ Departamento de Clínicas Médicas, División de Disciplinas Clínicas, CUCS, Universidad de Guadalajara, México.

Recibido: 13/01/2024.
Aceptado: 31/01/2024.

Las FADe son lesiones vasculares raras que representan aproximadamente 70% de todas las malformaciones vasculares espinales. Aunque la etiología exacta de las FADe es desconocida, se cree que pueden ser adquirida en lugar de congénita, generalmente ocasionada por eventos traumáticos, que produce una comunicación arteriovenosa (AV) de bajo flujo, lo cual lleva a una trombosis secundaria de las venas espinales extradurales y congestión venosa que, al disminuir el drenaje sanguíneo, produce edema del cordón medular y alteraciones neurológicas focales.^{1,2} Epidemiológicamente, se reconoce que FADe son más comunes en hombres de mediana edad y rara vez se observan en niños.^{3,4} La mayoría de las lesiones suelen ser únicas, cerca de 80% se localizan entre T6-L2.⁵

En el momento de la presentación, los síntomas pueden incluir dolor de inicio súbito acompañado de mielopatía o radiculopatía en caso de hemorragia, o mielopatía más gradual o escalonada en lesiones no hemorrágicas, con paraparesia progresiva, deprivación sensorial de extremidades inferiores, disfunción intestinal y/o vesical.⁶ Las fístulas durales corresponden a una causa tratable de paraplejía o tetraplejía progresiva.⁷

En numerosos casos, el diagnóstico de esta afección puede experimentar demoras significativas. Esto se debe a la naturaleza ambigua de la presentación clínica, la progresión gradual de los síntomas y la inconclusividad de los hallazgos radiográficos.⁸ Sin embargo, debido a los avances en el diagnóstico y manejo temprano, la discapacidad permanente a menudo se puede prevenir.⁹

PRESENTACIÓN DEL CASO CLÍNICO

El paciente es un adolescente de 14 años que ingresó a nuestro hospital tras un incidente durante un partido de fútbol. Fue llevado al suelo por un compañero de equipo, golpeando la parte posterior de su cuerpo contra el césped. En los días siguientes al incidente, el paciente experimentó dolor en el cuello y la espalda a nivel torácico, debilidad en las extremidades inferiores y pérdida de control de los esfínteres. A pesar de una mejora inicial transitoria, los síntomas empeoraron, culminando en una pérdida total de la respuesta motora en las extremidades inferiores en un periodo de cinco días desde el debut de sus síntomas.

Antecedentes heredofamiliares: madre conocida con neuralgia del trigémino, toxicomanías negadas, producto único de tercera gestación obtenido por

parto. Padre finado a los 56 años por infarto agudo al miocardio, empleado en empresa estatal petrolera, asmático, alcohólico, tabaquismo positivo.

Al momento de la exploración neurológica, se observaron varios hallazgos significativos. En términos de su estado mental, se encontró que estaba alerta, orientado en tiempo, espacio y persona, sin evidencia de déficits cognitivos. Las funciones cerebrales superiores, incluyendo el habla y el lenguaje, se encontraban dentro de la normalidad, concordante con orientación adecuada en tiempo, espacio y persona. Al evaluar los pares craneales, se determinó que los pares I-XII estaban intactos.

Sin embargo, al examinar el movimiento voluntario, se identificó una debilidad desproporcionada en las extremidades inferiores, especialmente en el lado derecho. Utilizando la escala de Daniels, se registró una paresia de grado 1/5 en la mano derecha y una paraplejía franca en ambas extremidades inferiores, la cual estaba acompañada de hipotonía en las extremidades afectadas. Al evaluar los reflejos osteotendinosos, se encontró un aumento significativo en los reflejos bicipital, tricipital y estilorrádial en ambos lados, mientras que los reflejos patelar y aquileo estaban ausentes. En la evaluación de sensibilidad, se determinó que la sensibilidad táctil y dolorosa estaba preservada en ambos miembros. Se detectó pérdida del control de los esfínteres al mostrar el reflejo de Bevhor negativo.

De acuerdo a la evaluación del grado de función neurológica a su ingreso, su clasificación en la escala de Frankel sería la categoría "B".

Discusiones clínicas

El cuadro clínico del paciente es indicativo de un síndrome de compresión medular incompleto, con un nivel motor en T12 bilateral y un nivel sensitivo en L4 en la extremidad derecha. La sospecha inicial es de un infarto intramedular, posiblemente causado por el trauma sufrido durante el partido de fútbol. Durante su internamiento, en paraclínicos y estudios de extensión, se diagnosticó la presencia de sinusitis y alteraciones hematológicas, como leucocitosis y neutrofilia, los cuales fueron considerados en el diagnóstico diferencial.

Resultados de las pruebas de laboratorio y otras investigaciones

Las pruebas de laboratorio revelaron leucocitosis y neutrofilia, indicativas de una respuesta inflamatoria.

Se realizó resonancia magnética de eje neural con un ensanchamiento del cordón medular en la médula espinal desde C2 hasta T10, acompañado de evidencia de edema intramedular. Asociado a imágenes de susceptibilidad magnética en el nivel de T2-T3 (Figura 1), las cuales mostraron realce tras la administración de medio de contraste sugerentes de posibles vasos sanguíneos extradurales sin reforzamiento.



Figura 1: Imagen de DICOM ROI 255x255 TW2 (TE: 80 TR: 3500) Imagen por resonancia magnética nuclear, corte sagital, secuencia ponderada en T2; se observa lesión hiperintensa a nivel de T2.

SEGUIMIENTO Y RESULTADOS

El paciente fue admitido en el piso de pediatría para el manejo por parte del servicio de neurocirugía pediátrica. A pesar del tratamiento con antibióticos para la sinusitis y el manejo de las alteraciones hematológicas, no se observó mejoría en la respuesta motora de miembros pélvicos. Con los hallazgos radiológicos, acompañado de su progresión atípica, se decide complemento endovascular diagnóstico y terapéutico:

En la angiografía espinal diagnóstica en sala de hemodinamia, se llevó a cabo la canalización de la arteria femoral. Se logró identificar el sitio de la fístula arteriovenosa dural espinal a nivel de T5 (Figura 2).

Se realiza embolización endovascular de fístula arteriovenosa dural espinal. Mediante la canalización de la arteria pedicular derecha de T5, se encontró y canalizó el trayecto fistuloso. Se inyectó n-butil 2-cianoacrilato (NBCA) y lipiodol (Lipiodol Ultra-Fluid) sobre el trayecto en dos ocasiones. Posteriormente, se observó obliteración de fístula y estasis venosa en la vena medular anterior. Se clasificó como fístula tipo 2 según la clasificación de Borden (arteria nutricia con drenaje a sistema venoso extra e intradural) (Figura 3).¹⁰

Fue referido al servicio de rehabilitación hospitalaria para continuar con la terapia física.

DISCUSIÓN

El caso del paciente ilustra la complejidad del diagnóstico y manejo de los síndromes de compresión

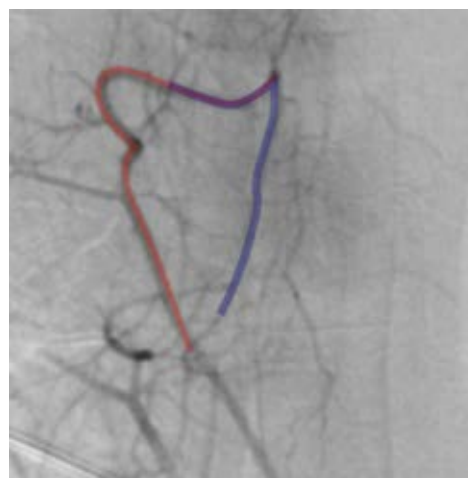
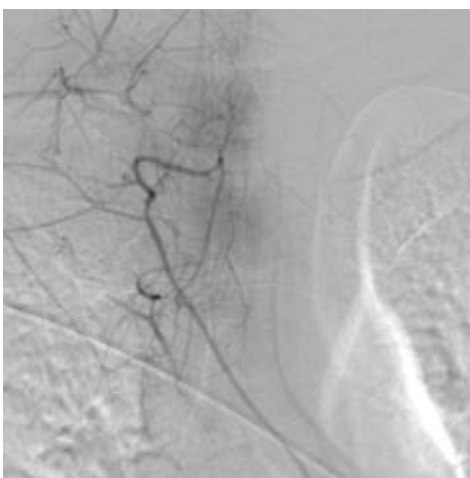


Figura 2:

Angiografía de médula espinal endovascular con sustracción digital.

medular, especialmente en el contexto de un trauma. A pesar de la presentación inicial relativamente benigna, la condición del paciente empeoró rápidamente, subrayando la necesidad de una evaluación y manejo rápidos en estos enfermos. Este caso también destaca la importancia de la rehabilitación en el manejo de estos casos, todo con el objetivo de maximizar la recuperación y mejorar la calidad de vida. Nuestro informe proporciona una visión única y cuidadosa de un caso pediátrico de fístula arteriovenosa dural espinal, una condición que se encuentra predominantemente en la población adulta. Sin embargo, es importante reconocer que, como es característico de los informes de casos, los hallazgos presentados aquí son específicos de un solo paciente y, por lo tanto, podrían no ser completamente aplicables a otros casos pediátricos con esta condición.

La literatura médica sobre la fístula arteriovenosa dural espinal en la población pediátrica es escasa, lo que subraya la relevancia de este informe de caso, tal como lo cita Kendall en su reporte de casos en los que no estaba presente ningún paciente pediátrico.

En 2016, el departamento de neurocirugía del *Seoul National University Hospital* de Corea del Sur, decidió iniciar una investigación acerca de las características clínicas y los resultados del tratamiento de enfermedades vasculares espinales en pacientes pediátricos; se incluyó una muestra total de 10 casos, incluidos tres de malformaciones arteriovenosas (MAV) intramedulares, seis casos de fístulas arteriovenosas (FAV) perimedulares y uno de FAV epidural. Se evaluaron las características clínicas, los hallazgos radiológicos, los resultados del tratamiento y los resultados clínicos, concluyendo que las MAV y FAV espinales pediátricas eran en su mayoría tipos complejos y de alto flujo, y no se pudo lograr una obliteración completa de manera satisfactoria.¹¹

La presentación clínica, los hallazgos radiográficos y la respuesta al tratamiento en este caso son consistentes con el diagnóstico de fístula arteriovenosa dural espinal. Aunque la causa exacta de esta condición en pacientes pediátricos no está claramente establecida, este caso aporta evidencia adicional a la hipótesis de que puede ser similar a la observada en adultos.

Este informe de caso subraya la importancia de tener en cuenta la fístula arteriovenosa dural espinal como un diagnóstico diferencial en pacientes pediátricos con síntomas de mielopatía progresiva

Malformación arteriovenosa fistulosa dural

Tipo 1	Tipo 2	Tipo 3
<ul style="list-style-type: none"> • FAV extradural o epidural • Plexo venoso de Batson 	<ul style="list-style-type: none"> • Arteria nutricia con drenaje a sistema venoso extra e intradural 	<ul style="list-style-type: none"> • FAV dorsal intradural

Figura 3: Clasificación de Borden.
FAV = fístula arteriovenosa.

subaguda, a pesar de su prevalencia más común en adultos. Además, resalta la necesidad de un diagnóstico temprano y una intervención adecuada para prevenir la progresión de los síntomas y mejorar los déficits neurológicos existentes.

REFERENCIAS

1. Amanieu C, Hermier M, Peyron N, Chabrol A, Deiana G, Manera L. Spinal dural arteriovenous fistula. *Diagn Interv Imaging*. 2014;95(9):897-902.
2. Yen PP, Ritchie KC, Shankar JJ. Spinal dural arteriovenous fistula: correlation between radiological and clinical findings. *J Neurosurg Spine*. 2014;21(5):837-842.
3. Kendall BE, Logue V. Spinal epidural angiomatous malformations draining into intrathecal veins. *Neuroradiology*. 1977;13(4):181-189.
4. Merland JJ, Riche MC, Chiras J. Intraspinal extramedullary arteriovenous fistulae draining into the medullary veins. *J Neuroradiol*. 1980;7(4):271-320.
5. Schaat TJ, Salzman KL, Stevens EA. Sacral origin of a spinal dural arteriovenous fistula: case report and review. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2002;27(8):893-897.
6. Casasco AE, Houdart E, Jhaveri HS, et al. Embolization of spinal vascular malformations. In: Connors, Woja, eds. *Interventional neuroradiology: strategies and practical techniques*. Philadelphia: Saunders; 1999: 186-198.
7. Krings T, Geibprasert S. Spinal dural arteriovenous fistulas. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2009;30(4):639-648. doi: 10.3174/ajnr.A1485.
8. Aminoff MJ, Barnard RO, Logue V. The pathophysiology of spinal vascular malformations. *J Neurol Sci*. 1974;23(2):255-263.
9. Behrens S, Thron A. Long-term follow-up and outcome in patients treated for spinal dural arteriovenous fistula. *J Neurol*. 1999;246(3):181-185.
10. Borden JA, Wu JK, Shucart WA. A proposed classification for spinal and cranial dural arteriovenous fistulous malformations and implications for treatment. *J Neurosurg*. 1995;82(2):166-179.
11. Cho WS, Wang KC, Phi JH, Lee JY, Chong S, Kang HS, Han MH, Kim SK. Pediatric spinal arteriovenous malformations and fistulas: a single institute's experience. *Childs Nerv Syst*. 2016;32(5):811-818.

Consentimiento informado: el paciente implicado en este estudio ha proporcionado su consentimiento informado. Se ha asegurado de que comprende la naturaleza del estudio, los procedimientos realizados.

Financiamiento: este estudio no recibió ningún tipo de financiamiento o apoyo financiero.

Divulgaciones: los autores no tienen ningún interés personal, financiero o institucional en ninguno de los medicamentos, materiales o dispositivos descritos en este artículo.

Conflicto de intereses: los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses en relación con este estudio.

Agradecimientos: deseamos agradecer al Dr. Héctor Velázquez, Jefe de Servicio de Neurocirugía del Hospital Civil Nuevo de Guadalajara, por su apoyo al desarrollo de la neurocirugía y por impulsar la actividad académica. Su contribución ha sido valiosa para la realización de este estudio de caso.

Correspondencia:

Dr. Missael de Jesús Salcedo-Hernández.

E-mail: missael.salcedohdez@gmail.com