

EMBOLIZACIÓN CURATIVA DE FÍSTULA ARTERIOVENOSA DURAL USANDO ONYX. REPORTE DE CASO

Curative embolization of dural arteriovenous fistula using Onyx. Case report

GIANCARLO SAAL-ZAPATA ^{1a}, WALTER DURAND C. ^{1a}, RODOLFO RODRIGUEZ V. ^{1a}

¹Departamento de Neurocirugía, Servicio de Neurorradiología, Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima, Perú. ^aNeurocirujano

RESUMEN

Introducción: Las fistulas arteriovenosas durales son lesiones vasculares que requieren alto índice de sospecha para su diagnóstico, ya que se presentan clínicamente de diversas formas, además se requiere de procedimientos invasivos como la angiografía por sustracción digital para su confirmación diagnóstica.

Presentación clínica: Reportamos el caso de una mujer previamente sana de 44 años procedente de la sierra con diagnóstico de un hematoma intracerebral espontáneo, no tratada en su lugar de origen. Es trasladada a la capital para estudio y posible tratamiento. Se diagnostica una fistula arteriovenosa dural con aferente de la arteria meningea media y ectasia venosa siendo catalogada como una fistula Cognard grado IV. Se realiza angiografía diagnóstica y posteriormente embolización del agujero fistuloso con sustancia embolizante Onyx, evolucionando favorablemente. En la angiografía post embolización inmediata y de control a los 6 meses hay ausencia total de fistula, catalogándola como paciente curada.

Conclusión: La sospecha diagnóstica inicial, la confirmación por angiografía cerebral, un adecuado estudio de la anatomía y la localización exacta del agujero fistuloso son factores que favorecen la curación de estos pacientes. El tratamiento en un centro especializado que cuente con la infraestructura adecuada y con personal entrenado es vital para lograrlo.

Palabras Clave: *Fistula, Arterias menígeas, Hemorragia Intracraneal, Angiografía de Substracción Digital.* (fuente: DeCS Bireme)

ABSTRACT

Introduction: Dural arteriovenous fistulas (DAVF) are vascular lesions that require a high suspicious index for its diagnosis, because of their wide variety of clinical manifestations, moreover, invasive procedures such as digital subtraction angiogram (DSA) is the gold standard and is required for its diagnostic confirmation.

Clinical presentation: We report the case of a previously healthy 44-year-old young woman coming from the highlands of Peru, with the diagnosis of spontaneous intracranial hemorrhage, not treated at her local hospital. She was transferred to the capital city for complementary studies and possible treatment. DSA revealed a dural arteriovenous fistula, with feeder from the middle meningeal artery and venous cortical reflux, being catalogued as a Cognard grade IV/Borden III DAVF, we decided to perform an embolization of the fistulous communication with the non-adherent liquid embolic agent Onyx, with good clinical evolution. Immediate post embolization DSA and 6-month follow-up control DSA showed total absence of the fistula, being the patient catalogued as cured.

Conclusion: Initial diagnostic suspect, digital subtraction angiogram confirmation, an accurate study of the anatomy and the exact location of the fistulous communication are factors that favor the cure in these patients. The treatment in a specialized center that counts with the adequate infrastructure and with trained staff is vital to achieve cure

Keywords: *Fistula, Meningeal Arteries, Intracranial Hemorrhages, Angiography Digital Subtraction.* (source: MeSH NLM)

Peru J Neurosurg 2019, 1 (3): 59-64

Las fistulas arteriovenosas durales son anastomosis entre arterias durales y un seno venoso o sus tributarias. La incidencia es de 0.17/100,000 habitantes, representan el 10-

15% de las malformaciones vasculares y la tasa de ruptura es 1.5% por año según la bibliografía. ¹

La etiología de estas lesiones actualmente es considerada tanto congénita como adquirida, siendo la teoría de la

Enviado : 06 de enero, 2019

Aceptado : 12 de junio, 2019

COMO CITAR ESTE ARTÍCULO: Saal-Zapata G, Durand W, Rodríguez R. Embolización curativa de fistula arteriovenosa dural usando Onyx. Reporte de caso. *Peru J Neurosurg* 2019; 1(3): 59-64

trombosis de un seno venoso dural o de sus tributarias (por trauma, infecciones, coagulopatías) la más aceptada, lo que desencadena la liberación de factores angiogénicos como el VEGF (factor de crecimiento de endotelio vascular) y el HIF (factor inducido por hipoxia) que crea un microambiente para la proliferación de las arterias durales, su engrosamiento y anastomosis con los senos o tributarias.¹⁻⁴

Las manifestaciones clínicas dependen de la localización, siendo la más grave el sangrado y cuando ocurre, se considera una fistula de presentación clínica agresiva, desencadenando una hemorragia intracerebral en la mayoría de los casos.⁵

Una vez hecho el diagnóstico, existen múltiples opciones de tratamiento: manejo conservador, oclusión manual, cirugía, tratamiento endovascular, radiocirugía o la combinación de ellos.^{6,7,8} Esto dependerá de la complejidad del caso, sin embargo, el tratamiento de primera línea actualmente es el endovascular.⁶

Reportamos el caso de una paciente joven de provincia, que presentó una hemorragia intracerebral debido a la ruptura de una fistula arteriovenosa dural Cognard IV.^{9,10} no tratada en su lugar de origen y que es referida a un centro especializado en el manejo de patología cerebro vascular y tratada con terapia endovascular.

CASO CLÍNICO

Historia y examen: Mujer de 44 años procedente de Huancayo (sierra del Perú), sin antecedentes de importancia, quien presentó cuadro de cefalea, náuseas, vómitos y pérdida de conciencia. Acudió a hospital de su región donde le realizó TEM cerebral sin contraste evidenciando hematoma intracerebral frontal basal izquierdo, siendo hospitalizada y tratada de manera conservadora en ese nosocomio. Tres semanas después del evento fue referida a nuestra institución para estudio y

manejo. Ingresó por el servicio de Emergencia, se encontraba en Glasgow 15 puntos, sin déficit motor ni sensitivo, con pupilas isocóricas y reactivas, ausencia de rigidez de nuca.

Se le solicitó TEM cerebral en la que se observó hematoma frontal basal izquierdo en resolución, se realizó también angioTEM cerebral con la cual se sospechó de fistula arteriovenosa rota o de malformación arteriovenosa rota (**Fig 1**). Se realizó angiografía cerebral por sustracción digital de 4 vasos evidenciando fistula arteriovenosa dural con aferente de la arteria menígea media izquierda, la cual se encontraba engrosada, con drenaje venoso cortical retrógrado hacia el tercio anterior del seno sagital superior y ectasia venosa con aneurisma venoso, siendo catalogada como fistula arteriovenosa dural Cognard IV. (**Fig 2**)

Tratamiento: Se planteó embolización de la fistula con el objetivo de obliterar el agujero fistuloso: el procedimiento se realizó en la sala de Neurorradiología del Hospital Nacional Guillermo Almenara, se utilizó el angiógrafo biplanar Philips Allura 3D, se realizó punción de la arteria femoral derecha mediante técnica de Seldinger, se colocó introductor de 6F, luego se introdujo catéter guía Chaperon 6F (Microvention), microcatéter Headway Duo (Microvention) y microguía Hybrid 007D (Balt), se navegó hasta arteria carótida externa y menígea media izquierdas, se realizó angiografía ultraselectiva para confirmar adecuada posición en agujero fistuloso, una vez confirmada la adecuada posición, se inyectó DMSO y 2.25 ml de sustancia embolizante Onyx® (Medtronic) cuidando siempre de no tener reflujo al vaso aferente.

Luego de la inyección del Onyx® se evidenció ausencia de la fistula con escaso reflujo de la sustancia embolizante a la arteria aferente. Se le realizó control angiográfico al término de la embolización evidenciando obliteración total de la fistula arteriovenosa dural. El tiempo operatorio fue de 30 minutos y no hubo complicaciones. (**Fig 3**)

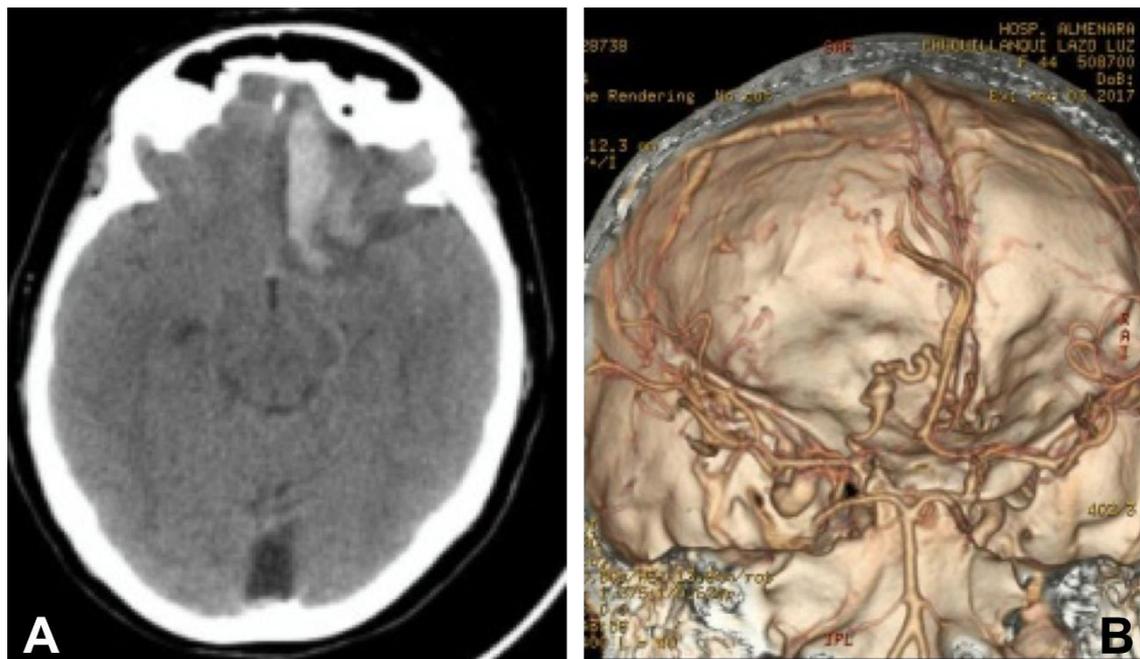


Fig 1: (A) TAC cerebral preoperatoria donde se evidencia hematoma frontobasal izquierdo por ruptura de fistula arteriovenosa dural. (B) AngioTEM cerebral donde se evidencia fistula arteriovenosa con presencia de ectasia venosa.

Evolución: La paciente cursó clínicamente estable luego del procedimiento, con evolución favorable, sin déficit motor, en la TEM cerebral de control no se evidenció sangrado activo, el hematoma frontobasal se reabsorbió casi en su totalidad (**Fig. 4**). Fue dada de alta a los 2 días sin mayores intercurencias. Se realizó control angiográfico a los 6 meses del procedimiento, observando ausencia de la lesión vascular.

DISCUSIÓN

El acceso a los servicios médicos especializados en las provincias del Perú es escaso, por lo que los pacientes con patología cerebral deben ser referidos a la capital para ser tratados, muchas veces tardíamente como en este caso (3 semanas después).¹¹

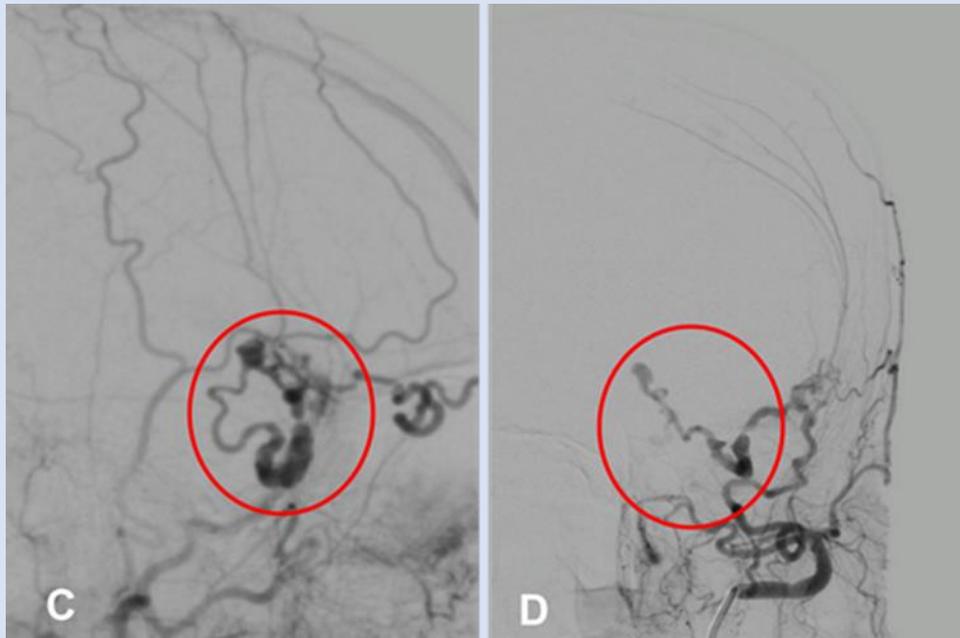


Fig 2: (C) Angiografía de carótida externa en proyección lateral, evidenciando fistula arteriovenosa dural con aferencia de la meningea media izquierda. (D) Angiografía de carótida externa en proyección anteroposterior, evidenciando fistula arteriovenosa dural con ectasia y aneurisma venoso, drenando al seno longitudinal superior.

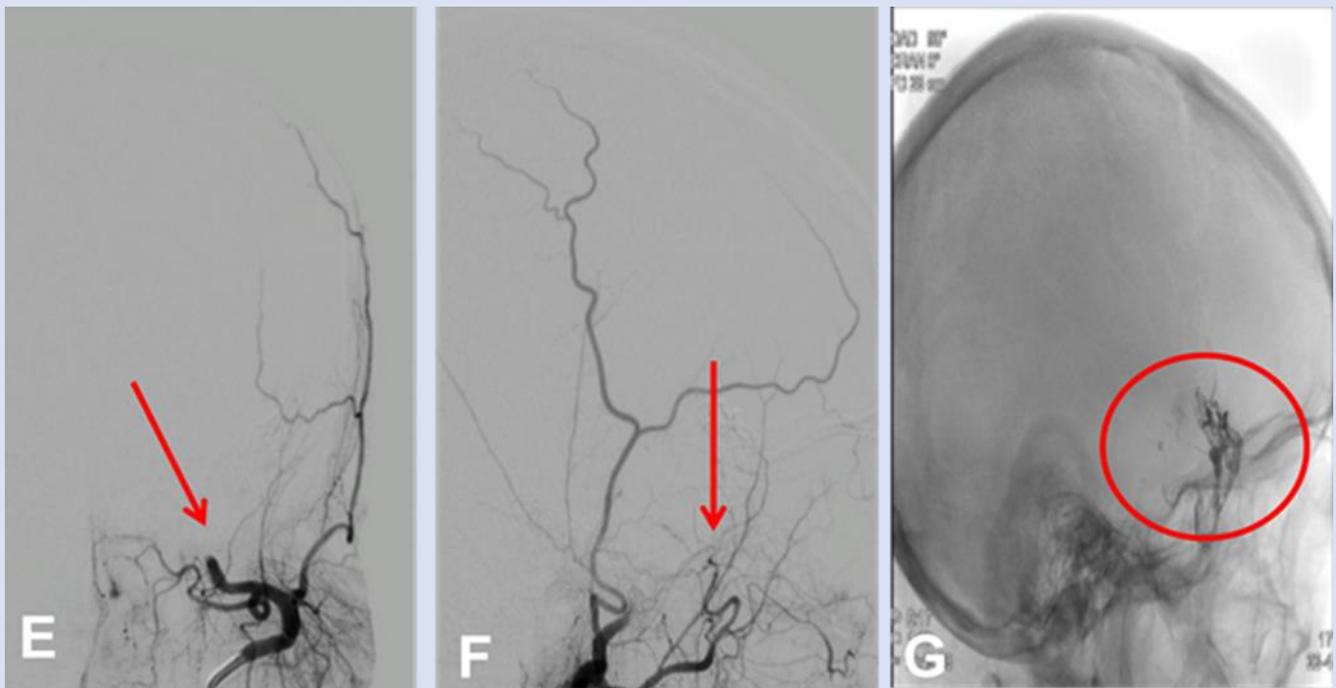


Fig 3. (E y F) Control angiográfico inmediato en proyecciones anteroposterior y lateral evidenciando ausencia de fistula, embolizada con Onyx y obliterando el orificio fistuloso. (G) Proyección lateral evidenciando el casco del Onyx.

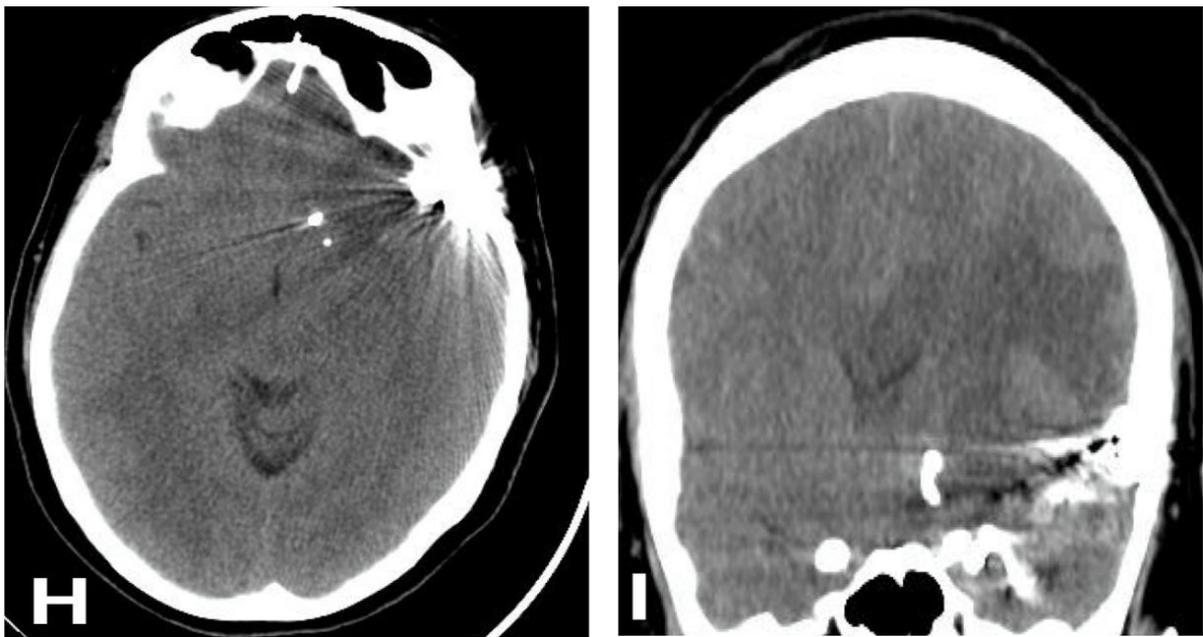


Fig. 4. (H, I) Control CT scan of embolized fistula with Onyx, no evidence of bleeding and left frontal hematoma almost reabsorbed

Las fistulas arteriovenosas dures son lesiones vasculares raras, la sospecha diagnóstica debe ser elevada, debido a que tienen diversas manifestaciones clínicas: en el caso de ser no rotas, pueden presentar déficit neurológico tardío, cefalea, tinnitus, entre otros. Esta sintomatología va a depender de la localización de la fistula. Por otro lado, al ser rotas, en la mayoría de los casos se presentan como una hemorragia intracerebral parenquimal, y menos frecuentemente como hematoma subdural.

Algunos exámenes radiológicos pueden ayudar, tales como la TEM cerebral, la resonancia magnética y el Doppler, sin embargo, el examen de elección y Gold estándar es la angiografía cerebral, la cual sirve para confirmar el diagnóstico, clasificarla según la clasificación de Cognard /Borden y así planificar el tratamiento.¹²

Existen dos clasificaciones para su estudio: la clasificación de Borden y de Cognard, ambas tienen como objetivo graduar las lesiones, identificar qué tipo de fistula requiere tratamiento y el pronóstico con respecto al sangrado.

La evolución dependerá del compromiso venoso de la fistula: la presencia de reflujo cortical venoso es un factor predisponente para su ruptura, presentándose en fistulas de alto grado. En aquellas lesiones Cognard I y IIa/Borden I el manejo es conservador al no existir ectasia venosa.

El tratamiento de elección actualmente es el endovascular, con la utilización de sustancias embolizantes no adherentes como el Onyx, se logra ocluir el agujero fistuloso de manera segura, esta técnica permite una adecuada navegación por las arterias cerebrales.

Se puede optar por el abordaje transarterial o transvenoso, dependiendo de las características angiográficas de la fistula. Las tasas de curación reportadas con el uso de Onyx son del 60% – 100%.^{13,14} Adicionalmente se puede emplear el N-butil-2 cianiacrilato con lipiodol en caso no contar con Onyx.¹⁵

En nuestro caso, encontramos una fistula con aferente de la arteria meníngea media izquierda con drenaje venoso leptomeníngeo y ectasia venosa cortical retrógrada, por lo que la clasificamos como Cognard tipo IV/Borden III. Al tener estas características se decidió en primera instancia realizar tratamiento endovascular, con el objetivo de identificar y ocluir el agujero fistuloso, se decidió emplear Onyx, una sustancia embolizante compuesta por etileno vinil-alcohol copolímero y su solvente el dimetil sulfoxido (DMSO), lográndose la embolización de la fistula con éxito. El control a los 6 meses mostró ausencia de la lesión.

CONCLUSIÓN

Actualmente la terapia endovascular es el tratamiento de elección en el manejo de fistulas arteriovenosas dures. El uso de sustancias embolizantes como el Onyx® han permitido la curación de un gran porcentaje de pacientes.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Ghobrial GM, Marchan E, Nair AK, Dumont AS, Tjoumakaris SI, Gonzalez LF, et al. Dural arteriovenous fistulas: A review of the literature and a presentation of a single institution's experience. *World Neurosurg* [Internet]. 2013;80(1-2):94-102. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2012.01.053>
- Baltsavias G, Parthasarathi V, Aydin E, Al Schameri RA, Roth P, Valavanis A. Cranial dural arteriovenous shunts. Part 1. Anatomy and embryology of the bridging and emissary veins. *Neurosurg Rev.* 2015;38(2):253-64.
- Baltsavias G, Kumar R, Avinash KM, Valavanis A. Cranial dural arteriovenous shunts. Part 2. The shunts of the bridging veins and leptomeningeal venous drainage. *Neurosurg Rev.* 2015;38(2):265-72.
- Tsai LK, Liu HM, Jeng JS. Diagnosis and management of intracranial dural arteriovenous fistulas. *Expert Rev Neurother.* 2016;16(3):307-18.
- Gross BA, Du R. The Natural History of Cerebral Dural. Vol. 71, *Neurosurgery.* 2012. p. 594-603.

6. Hacein-Bey L, Konstas AA, Pile-Spellman J. Natural history, current concepts, classification, factors impacting endovascular therapy, and pathophysiology of cerebral and spinal dural arteriovenous fistulas. **Clin Neurol Neurosurg [Internet]. 2014**;121:64–75. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.clineuro.2014.01.018>
7. Gross BA, Ropper AE, Popp AJ, Du R. Stereotactic radiosurgery for cerebral dural arteriovenous fistulas. **Neurosurg Focus [Internet]. 2012**;32(5):E18. Available from: <http://thejns.org/doi/10.3171/2012.1.FOCUS11354>
8. Kawaguchi S, Sakaki T. Surgical treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas. **Brain and Nerve. 2008**;60(8):897–906.
9. Cognard C, Gobin YP, Pierot L, Bailly AL, Houdart E, Casasco A, et al. Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. **Radiology [Internet]. 1995**;194(3):671–80. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/7862961>
10. Al-Mahfoudh R, Kirolos R, Mitchell P, Lee M, Nahser H, Javadpour M. Surgical disconnection of the cortical venous reflux for high-grade intracranial dural arteriovenous fistulas. **World Neurosurg [Internet]. 2015**;83(4):652–6. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2014.12.025>
11. Choque-Velasquez J, Colasanti R, Baffigo-Torre V, Societa-Carbajo LE, Olivari-Heredia J, Falcon-Lizaraso Y, et al. Developing the First Highly Specialized Neurosurgical Center of Excellence in Trujillo, Peru: Work in Progress—Results of the First Four Months. **World Neurosurg [Internet]. 2017**;102:334–9. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2017.01.063>
12. Lenthall R. Intracranial dural arteriovenous fistulas. **Interv Neuroradiol. 2014**;151–68.
13. Sadeh-Gonike U, Magand N, Armoiry X, Riva R, Labeyrie PE, Lamy B, et al. Transarterial Onyx Embolization of Intracranial Dural Fistulas: A Prospective Cohort, Systematic review, and Meta-Analysis. **Neurosurgery [Internet]. 2017**;0(0):1–10. Available from: [http://academic.oup.com/neurosurgery/advance-](http://academic.oup.com/neurosurgery/advance-article/doi/10.1093/neuros/nyx309/3869481)
14. Pierot L, Cognard C, Herbreteau D, Franssen H, Van Rooij WJ, Boccardi E, et al. Endovascular treatment of brain arteriovenous malformations using a liquid embolic agent: Results of a prospective, multicentre study (BRAVO). **Eur Radiol. 2013**;23(10):2838–45.
15. Rabinov JD, Yoo AJ, Ogilvy CS, Carter BS, Hirsch JA. ONYX versus n-BCA for embolization of cranial dural arteriovenous fistulas. **J Neurointerv Surg. 2013**;5(4):306–10.

Declaración de conflicto de intereses

Los autores reportan que no existe conflicto de interés en lo concerniente a los materiales y métodos usados en este estudio o a los hallazgos específicos del mismo.

Contribución de los autores

Concepción y diseño: Todos los autores. *Redacción del artículo:* Saal-Zapata. *Revisión crítica del artículo:* Rodríguez. *Revisó la versión reenviada del artículo:* Saal-Zapata. *Aprobó la versión final del artículo en nombre de todos los autores:* Saal-Zapata.

Correspondencia

Giancarlo Saal Zapata. Departamento de Neurocirugía. Hospital Guillermo Almenara Irigoyen. Av Grau Nro 800. La Victoria. Lima 13, Perú. Correo electrónico: gian_carlo1987@hotmail.com

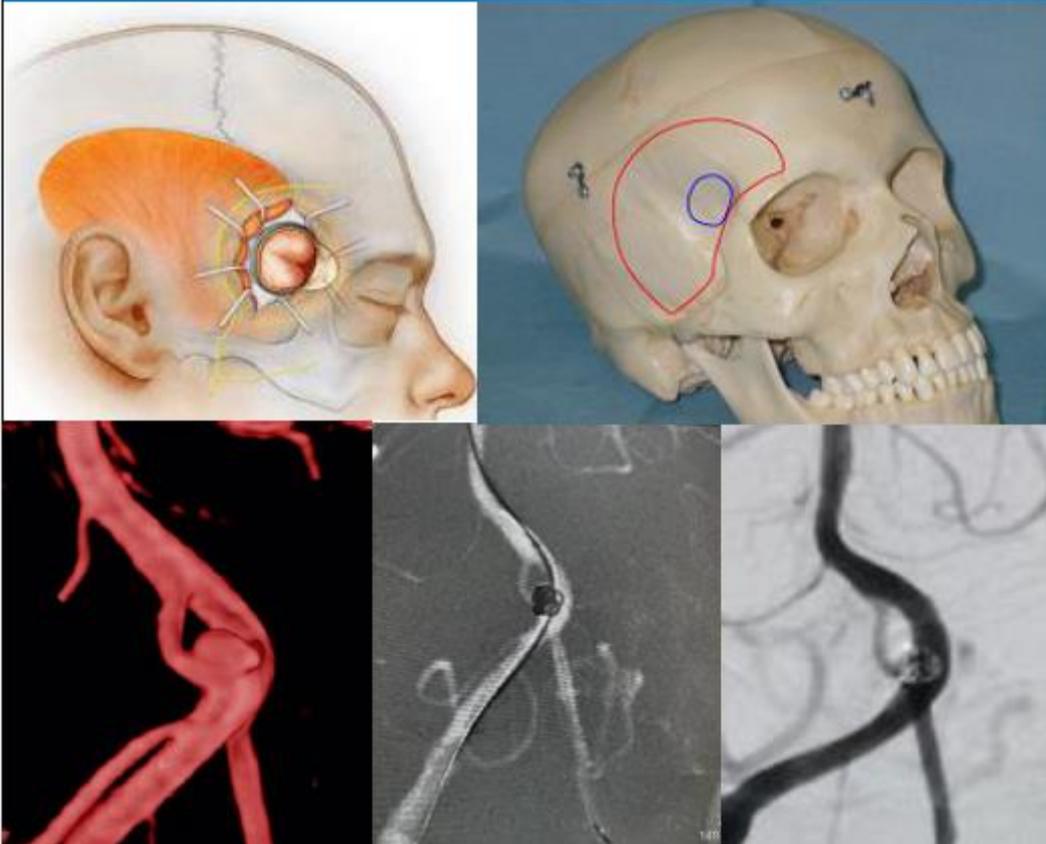
ANTERIOR NUMERO

PJNS

**PERUVIAN JOURNAL OF
NEUROSURGERY**

Vol 1 | Num 2 | Abr-Jun 2019

ANEURISMAS INTRACRANEALES



Cirugía Mínimamente Invasiva y Tratamiento Endovascular