

FÍSTULA DE LÍQUIDO CEFALORAQUÍDEO Y EROSIÓN ÓSEA POR QUISTES EN NEUROCISTICERCOSIS DE CISTERNA BASAL TRATADA POR ENDOSCOPIA

CSF leakage and bone erosion caused by cysts in basal cistern neurocysticercosis treated by endoscopy

JOHN MALCA B. ¹, JOSE-DANIEL FLORES S. ¹

¹Departamento de Neurocirugía, Servicio de Neurocirugía Vascular y Tumores, Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima, Perú.

RESUMEN

Introducción: La neurocisticercosis extraparenquimal y la forma racemosa, tienen gran predisposición a complicaciones. Los quistes subaracnoideos en la región selar son raros, se asocian a hipertensión endocraneal y trastornos de campos visuales.
Caso clínico: Paciente varón de 63 años con neurocisticercosis racemosa, hidrocefalia y fístula de líquido cefalorraquídeo. Fue sometido a endoscopia endonasal, evacuación de quistes del seno esfenoidal, región selar, supraselar, prepontina, y cierre de fístula. Además, presentó erosión en el peñasco izquierdo y fístula dural, que se cerraron con ayuda de microcirugía y endoscopia. El paciente tuvo evolución inicial favorable, con cuadriparesia espástica, que mejoró con rehabilitación. Posteriormente presentó episodios de disfunción de sistema de derivación ventriculoperitoneal.
Conclusión: La neuroendoscopia constituye un método diagnóstico y terapéutico de diversas formas de neurocisticercosis. La Neurocisticercosis extraparenquimal es capaz de producir erosión ósea y dural, por lo que se debe tener en cuenta en el diagnóstico diferencial de fístula de líquido cefalorraquídeo.

Palabras clave: Neurocisticercosis, Fístula, Neuroendoscopia, Seno esfenoidal, Quistes (fuente: DeCS Bireme)

ABSTRAC

Introduction: The extra-parenchymal neurocysticercosis and the racemose form are very predisposed to complications. Subarachnoid sellar cysts are rare, are associated with intracranial hypertension and disorders visual fields.
Clinical case: A 63-year-old male patient with racemose neurocysticercosis, hydrocephalus and cerebrospinal fluid fistula. He underwent endonasal endoscopy, removal of cysts from the sphenoid sinus, sellar, suprasellar, and prepontine regions, and fistula closure. He also presented erosion in the temporal bone and dural fistula, which were closed through microsurgery and endoscopy. The patient had a favorable initial evolution, with spastic quadriparesis, which improved with rehabilitation. Subsequently he presented episodes of ventriculoperitoneal shunt system dysfunction.
Conclusion: Neuroendoscopy is a diagnostic and therapeutic method of various forms of neurocysticercosis. Extra-parenchymal neurocysticercosis is able to produce bone and dural erosion, so must be considered in the differential diagnosis of cerebrospinal fluid.

Keywords: Neurocysticercosis, Fistula, Neuroendoscopy, Sphenoid sinus, Cysts (source: MeSH NLM)

<https://doi.org/10.53668/2019.PJNS11063>

Peru J Neurosurg 2019, 1 (1): 27-32

La neurocisticercosis es la parasitosis más frecuente del sistema nervioso central humano, endémica en Latinoamérica, India, regiones de Asia y África. En Estados Unidos y Europa se presenta con cierta frecuencia, mayormente en inmigrantes. Es causada por las larvas del cestodo *Taenia solium*. En Latinoamérica la cisticercosis cerebral con formas quísticas es frecuente, mientras que en Asia la cisticercosis subcutánea es común.

En general, la neurocisticercosis se presenta como formas intraparenquimales asociadas a cuadros convulsivos, o como

formas extraparenquimales, que incluye quistes subaracnoideos o intraventriculares. Los quistes subaracnoideos pueden alcanzar gran tamaño y forman lobulaciones (aspecto de racimo de uvas), pierden el escólex, se ubican por lo general en la base del cerebro o en la cisura de Silvio, y más raramente en la convexidad.

Los quistes subaracnoideos de la base llevan a hidrocefalia, mientras que los de la cisura de Silvio o de la convexidad causan efecto de masa (cefalea, focalidad neurológica, convulsiones y deterioro de la consciencia).

Enviado : 26 de agosto del 2016

Aceptado: 10 de mayo del 2017

COMO CITAR ESTE ARTICULO: Malca J, Flores J.D. Fístula de líquido cefalorraquídeo y erosión ósea por quistes en neurocisticercosis de cisterna basal tratada por endoscopia. *Peru J Neurosurg* 2019; 1(1):27-32. doi:10.53668/2019.PJNS11063

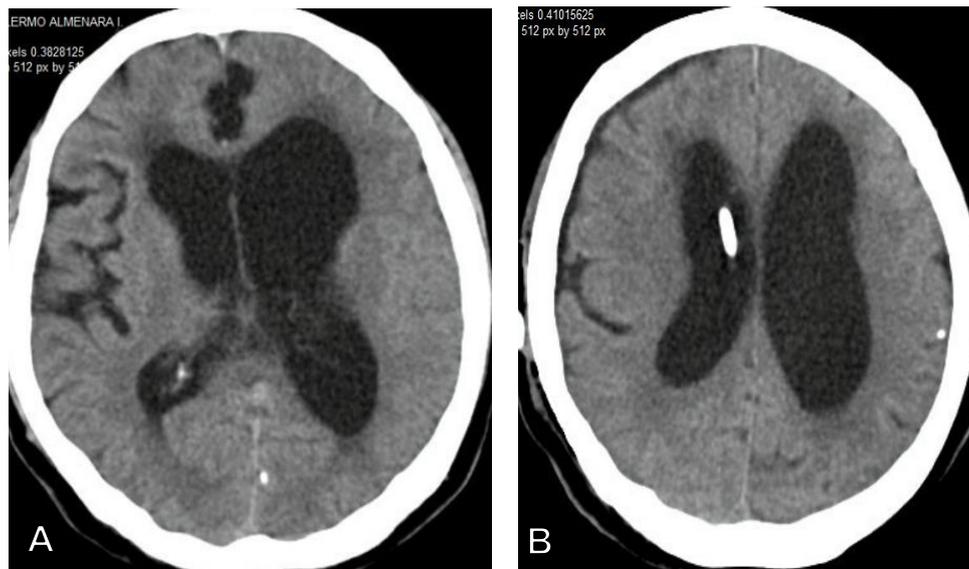


Fig 1. (A) Imagen tomográfica inicial marzo 2015, con dilatación ventricular y edema transependimario, (B) Post operatorio y presencia de catéter de shunt ventrículo peritoneal en ventrículo derecho.

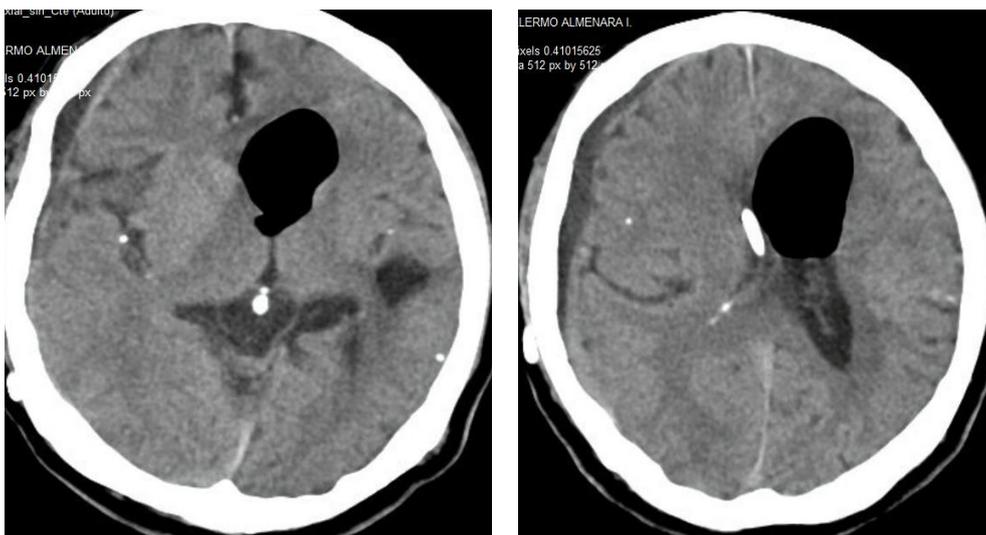


Fig. 2. Tomografía axial sin contraste que evidencia neuroencefalo en cuerno frontal

Se presenta el caso de un paciente con diagnóstico de neurocisticercosis, quien presenta hidrocefalia asociada a quistes subaracnoideos y fístula de líquido cefalorraquídeo en la base de cráneo.

CASO CLINICO

Historia y examen: Paciente varón de 63 años con antecedente neurocisticercosis desde el 2010 (Western blot positivo para cisticercosis - 6 bandas), e hidrocefalia de 1 año de evolución asociada a inestabilidad para la marcha, náuseas y vómitos, hemiparesia derecha progresiva. Ingres a emergencias del Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen (HNGAI) en marzo del 2015 por exacerbación de síntomas. Se le realiza TAC cerebral sin contraste que identifica calcificaciones cerebrales múltiples y dilatación ventricular (Figura 1), por lo que se le coloca sistema de

derivación ventrículo peritoneal (DVP) frontal derecho, dado de alta con buena evolución.

Tras dos meses del alta presentó inestabilidad postural asociado a traumatismo craneoencefálico leve, con posterior desorientación y somnolencia progresiva. Acude a emergencias del HNGAI, y en la TAC cerebral se evidencia neuroencefalo (cuerno frontal izquierdo), imagen de silla turca vacía, que invadía parte de seno esfenoidal con erosión en la pared anterior (Figura 2), la cual ya se visualizaba en imágenes previas (Figura 3).

Tratamiento: A 5 meses tras la DVP es sometido a abordaje endoscópico transnasal (Figura 4), evidenciándose salida de líquido a través del defecto óseo de la pared anterior del seno esfenoidal, procediéndose a la esfenoidectomía con extracción de múltiples quistes de cisticercos (seno esfenoidal, silla turca y cisternas supraselar y prepotina). Se realizó cierre hermético de la fístula, colocando una pequeña

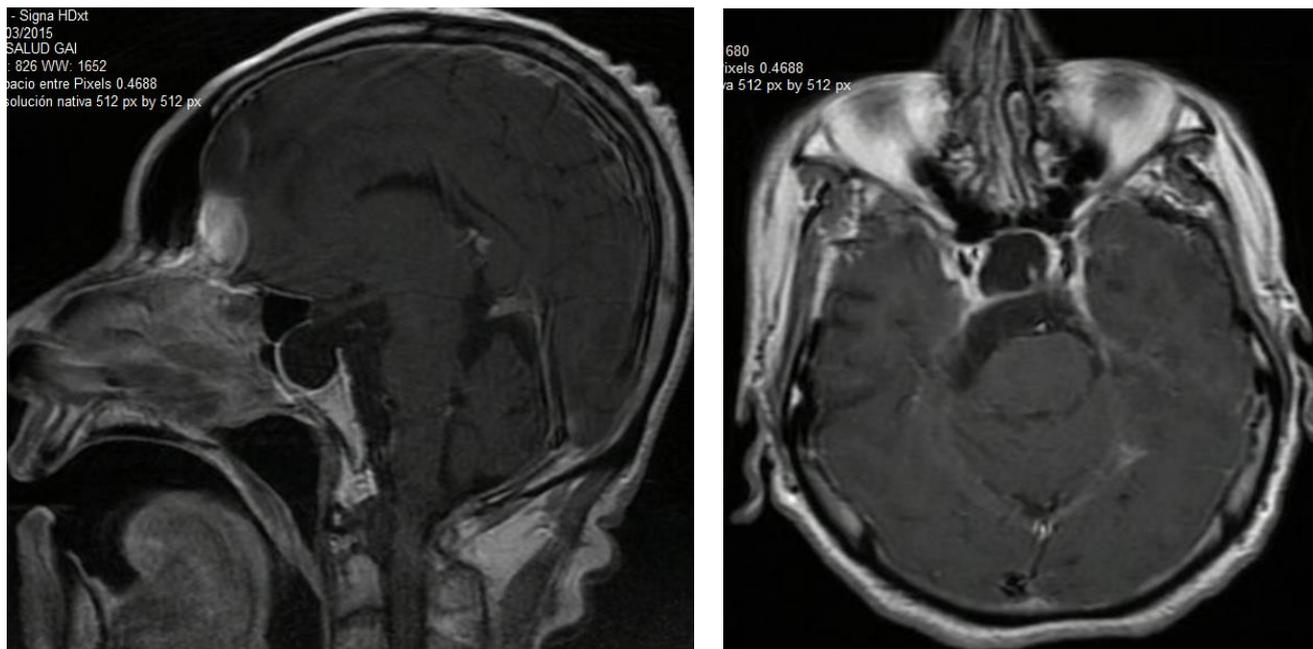


Fig 3. Resonancia magnética con gadolinio en cortes sagital y axial, previa a cirugía de derivación ventrículo peritoneal, que muestra imagen de silla turca agrandada, aparentemente llena de líquido cefalorraquídeo abarcando casi la totalidad del seno esfenoidal

cantidad de grasa envuelta en celulosa oxidada (Surgicell) dentro de la silla turca, otra de igual forma dentro del seno esfenoidal y finalmente se cubrió el defecto con un injerto de mucosa obtenido del cornete medio (Figura 5).

El estudio anatomopatológico de la muestra confirmó neurocisticercosis. Posteriormente el paciente cursó con ventriculitis, recibiendo tratamiento antibiótico de amplio espectro, se le retiró el sistema DVP, y se colocó un drenaje ventricular externo (DVE) un mes después del abordaje endoscópico. El neumoencéfalo persistente nos obligó al estudio detenido de imágenes, identificando probable fístula

de cara anterior del peñasco izquierdo (Figura 6A), que se confirmó tras la cirugía realizada 2 meses después del abordaje endoscópico transnasal, mediante craneotomía pterional y subtemporal, con ayuda de microscopio y endoscopio. Se encontró erosión ósea en la cara anterosuperior del peñasco y fístula dural (Figura 6B), que se cerraron herméticamente con cera de hueso, capas superpuestas de hemocolágeno (Gelfoam), grasa y sutura de la duramadre con seda 4/O.

Evolución: El paciente evolucionó favorablemente, encontrándose despierto, con EG 13 puntos (O4, V3, M6),

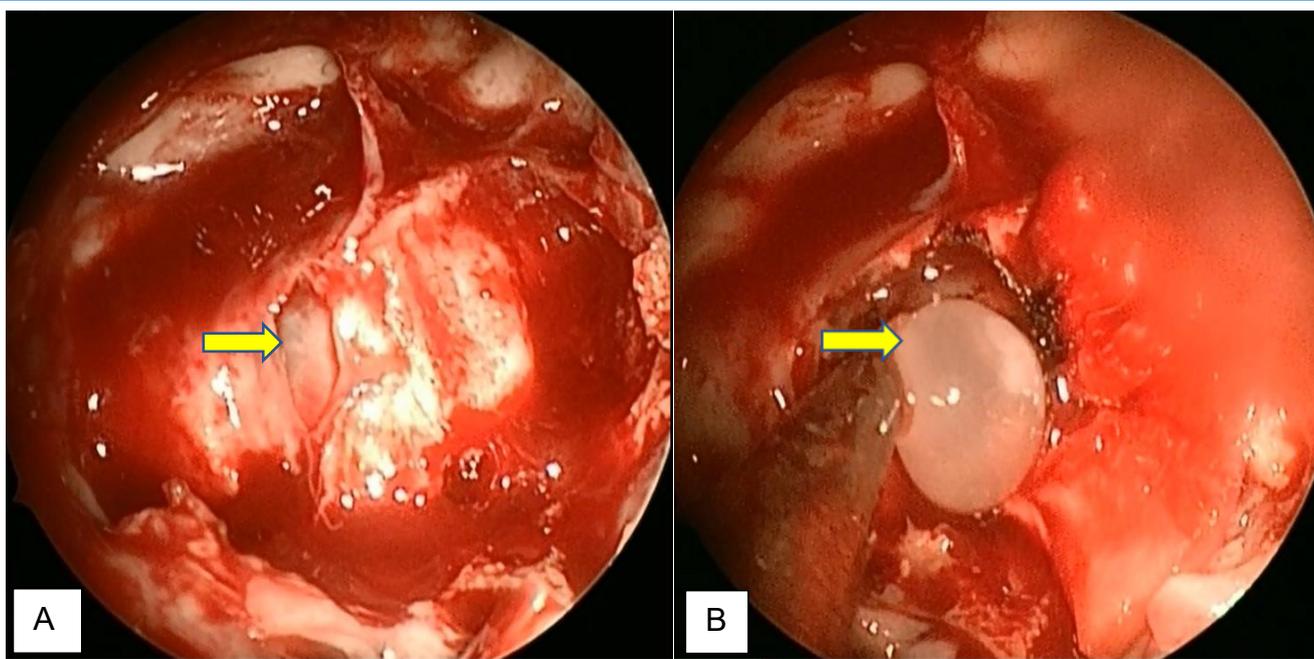


Figura 4. (A) Abordaje endoscópico transnasal. Evidencia defecto óseo en la pared anterior del seno esfenoidal. (B) Salida de quistes de cisticerco a través del mismo.

persistió con cuadriparesia espástica moderada, que mejoró con rehabilitación en el transcurso del tiempo. El paciente posteriormente presentó varios episodios de disfunción valvular, con múltiples ingresos y cirugías de recambio repetitivas, con un deterioro progresivo de su estado de salud.

DISCUSIÓN

Dependiendo del lugar en el que se alojan los quistes del parásito, la neurocisticercosis se clasifica en medular, parenquimal y extraparenquimal (que incluye las formas subaracnoidea e intraventricular). Ésta última es poco frecuente, y la presentación combinada es excepcional¹. La forma extraparenquimal suele presentar un

comportamiento agresivo, dada su gran predisposición a producir complicaciones². Los quistes subaracnoideos de neurocisticercosis pueden formar lobulaciones (aspecto de racimo), pierden el escólex y se localizan por lo general en la base del cerebro, cisura de Silvio, y más raramente en la convexidad.

La neurocisticercosis racemosa difiere de la forma parenquimal. Se origina a partir de la proliferación aberrante de larvas del cestodo, es clínicamente más agresiva, y se encuentra reportada en 15-54% de pacientes¹³. Usualmente se presenta como forma meníngea, intraventricular o subaracnoidea (cisternal). Produce meningitis y adhesiones que resultan en hidrocefalia. Puede desencadenar vasculitis y atrapamiento de nervios craneales en el exudado inflamatorio. En la forma intraventricular y subaracnoidea, las oncosferas alcanzan los ventrículos a

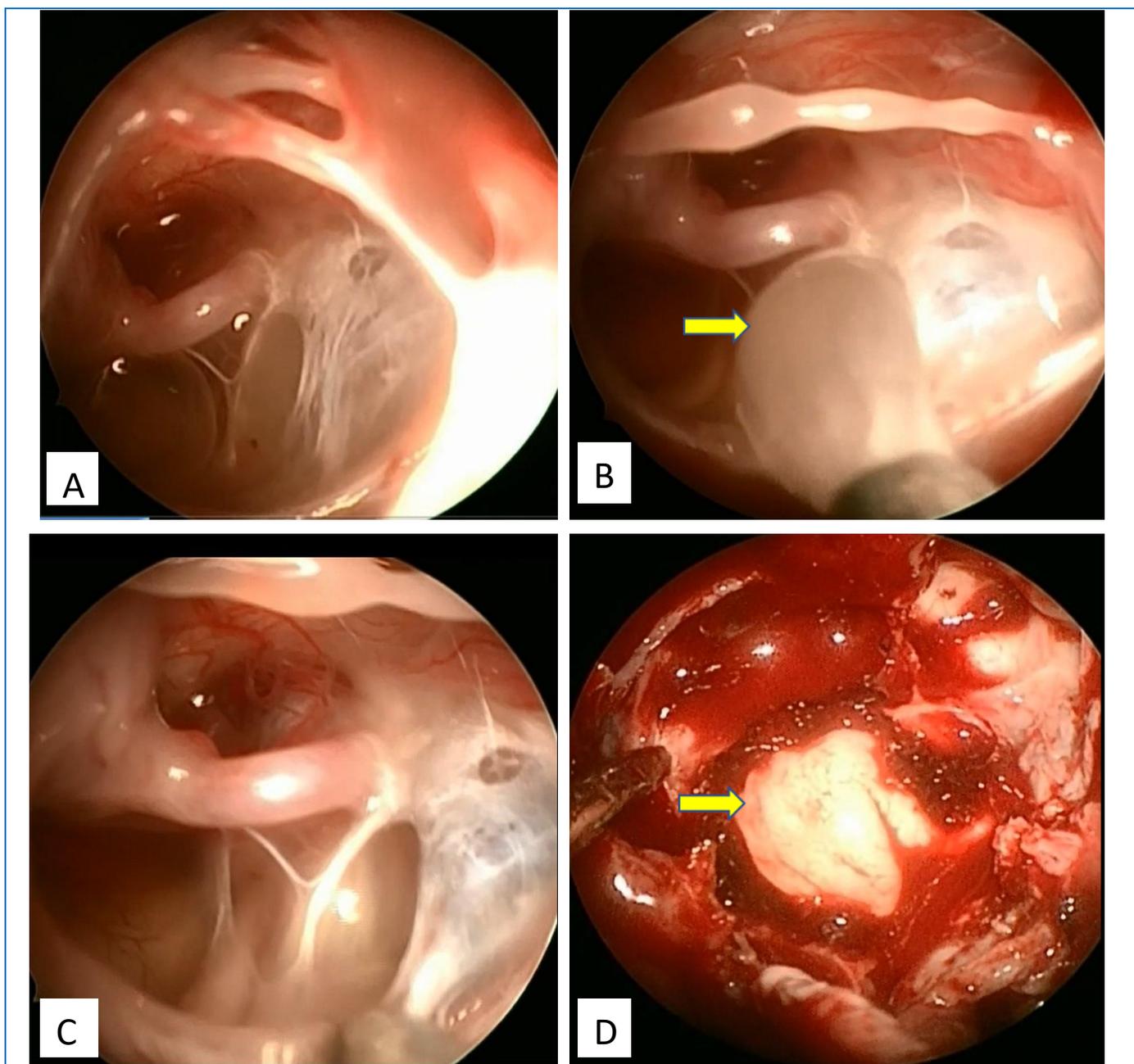


Fig.5. (A, B, C): Visión endoscópica de la extracción de quistes de cisticerco de la silla turca, además se puede apreciar la aracnoides engrosada debido a la aracnoiditis ocasionada por la infección parasitaria. (D) Defecto óseo cubierto con colgajo de mucosa de cornete medio.

través de los plexos coroideos. La muerte de las larvas causa ependimitis, que contribuye a la producción de hidrocefalia^{13,15}. Es considerada una forma maligna de infección si se asocia a hidrocefalia secundaria a meningitis por cisticercos, alcanzando una mortalidad del 50%¹⁴.

En nuestro caso reporte se evidencia mediante endoscopia endonasal la intensa reacción inflamatoria cisternal, como consecuencia de la neurocisticercosis racemosa que padece el paciente (Figuras 4 y 5). Esto estaría en relación con el desarrollo de erosión ósea y de duramadre, con la subsecuente fístula de líquido cefalorraquídeo que padece el paciente, lo cual, según nuestra revisión bibliográfica, no ha sido identificado en otro caso reporte de pacientes con neurocisticercosis.

Los quistes de cisticerco subaracnoideo pueden alcanzar un gran tamaño cuando están localizados en una cisura amplia como la de Silvio, y se denomina enfermedad racemosa gigante cuando el tamaño de las vesículas es mayor de 50 mm, como en el caso presentado por Kumar et al³. Los quistes subaracnoideos de la base llevan a hidrocefalia, mientras que los de la cisura de Silvio o de la convexidad causan efecto de masa⁴. La neurocisticercosis extraparenquimal está asociada a una respuesta inflamatoria local con alta concentración de proteínas y células en el líquido cefalorraquídeo, lo cual contribuye al desarrollo de hidrocefalia y a las altas tasas de disfunción de los sistemas de derivación ventrículo-peritoneal, que sobrepasan hasta el 50% a los 5 años^{5,12}.

La neurocisticercosis, en particular la forma subaracnoidea, se asocia también a otras complicaciones. Puede producir enfermedad cerebrovascular, incluyendo infarto, ataque isquémico transitorio y hemorragia intraparenquimal. El mecanismo más común asociado es el desarrollo de arteritis^{6,7}. En raros casos, la Neurocisticercosis racemosa puede causar demencia. Sin embargo, 66-87% de pacientes con neurocisticercosis han reportado tener disturbios

cognitivos, y la demencia o el deterioro cognitivo severo ha sido reportado en 12-15% de pacientes⁸, dentro del cual estaría incluido el paciente de nuestro caso reporte, quien presentó compromiso importante de sus funciones mentales superiores.

Los casos de quistes subaracnoideos en la región selar son raros, y con frecuencia se asocian a hipertensión endocraneal secundaria a hidrocefalia, trastornos de campos visuales como hemianopsia o amaurosis, y compromiso endocrinológico (amenorrea, ganancia de peso)^{9,10}. Arriada et al¹¹, reportan el caso de un paciente de 25 años con neurocisticercosis que debuta con el cuadro mencionado, en quien la tomografía cerebral con foco en la región selar demostró la presencia una lesión quística con erosión parcial de la silla turca y del seno esfenoidal, asociada a desplazamiento de la hipófisis y quiasma óptico. En este caso el tratamiento quirúrgico también se realizó vía transesfenoidal, logrando mejoría neurológica parcial.

En nuestro caso reporte presentamos un paciente con diagnóstico establecido de neurocisticercosis, que desarrolla hidrocefalia la cual fue tratada inicialmente por medio de derivación ventrículo-peritoneal. Sin embargo, en el transcurso del tiempo a pesar de ser controlada la hipertensión endocraneal, desarrolla fístula de líquido cefalorraquídeo, neumoencéfalo y meningocele en seno esfenoidal. Se planteó inicialmente la posibilidad de fístula postraumática asociada a los hallazgos mencionados, sin embargo, al realizar la neuroendoscopia vía transnasal, se evidencia la presencia de un quiste de cisticerco en el seno esfenoidal con erosión de la pared, que sería la causa de la fístula del paciente. Del mismo modo se demostró la presencia de múltiples quistes en la región selar, supraselar y preoptina. Finalmente se confirmaron los diagnósticos de hidrocefalia, neurocisticercosis y fístula de líquido cefalorraquídeo a través de silla turca, seno esfenoidal y a través del peñasco, mediante visión directa con el endoscopio.

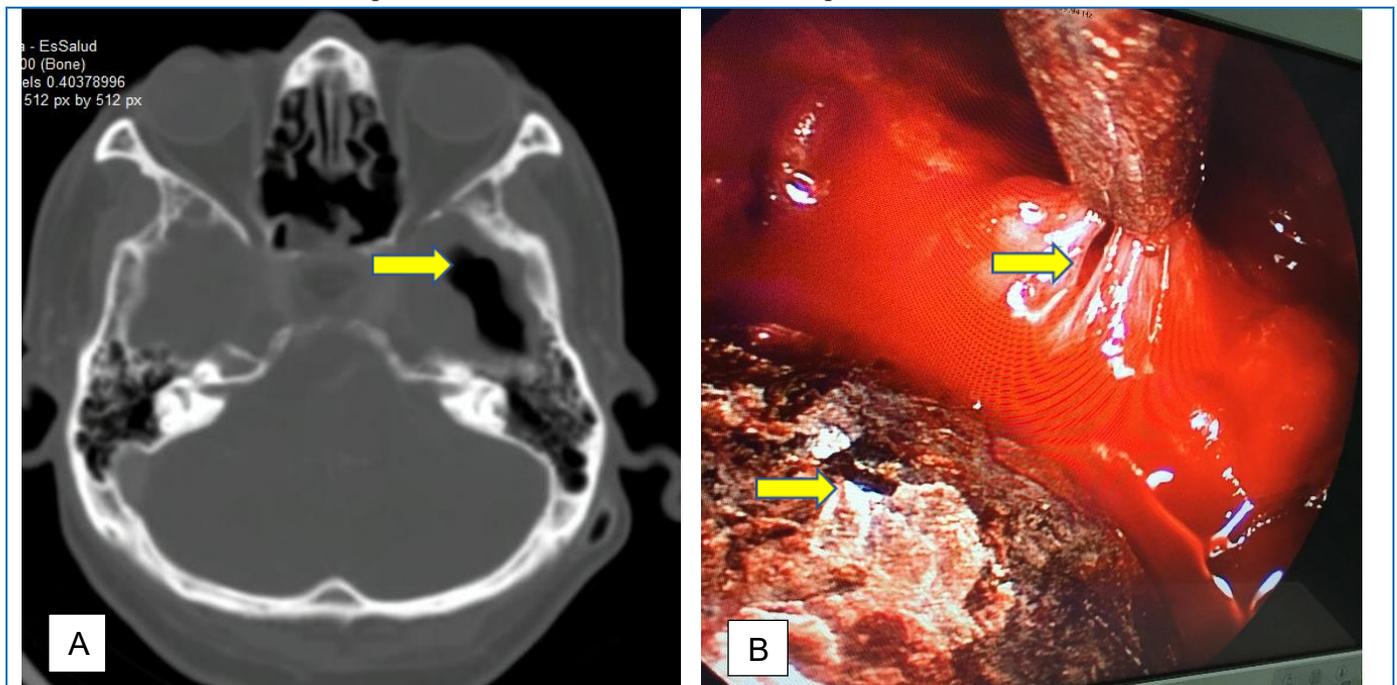


Fig. 6. (A) Abordaje endoscópico transnasal. Evidencia defecto óseo en la pared anterior del seno esfenoidal. (B) Salida de quistes de cisticerco a través del mismo.

Debemos tener en cuenta esta forma de presentación como diagnóstico diferencial en un paciente con neurocisticercosis extraparenquimal subaracnoidea que presente hidrocefalia y fístula de líquido cefalorraquídeo. Con ayuda de la neuroendoscopia vía transesfenoidal puede llegarse al diagnóstico definitivo y lograr la exéresis de los quistes como parte del tratamiento.

En los diversos reportes de pacientes con la forma extraparenquimal de la enfermedad, la neuroendoscopia ha demostrado ser de gran utilidad, ya que permite la visualización y extracción directa de los quistes. La neuroendoscopia permite el manejo de la hidrocefalia secundaria post hemorrágica y post infecciosa hasta un 60%¹⁶, aunque faltan estudios en el caso de la post infección por neurocisticercosis, teniendo en cuenta que los fármacos antiparasitarios no llegan a derrotar del todo al tipo extraparenquimal.

Existe escasa bibliografía sobre quistes subaracnoideos que erosionen el seno esfenoidal, y tras una revisión exhaustiva de la literatura, no hemos encontrado reportes de pacientes con fístula asociada a neurocisticercosis extraparenquimal subaracnoidea como en nuestro caso, que además presentó fístula y erosión en dos puntos óseos (piso de silla turca y pared anterosuperior del peñasco izquierdo), por lo cual este caso se torna de interés en el campo de la neurocirugía.

CONCLUSION

El endoscopio constituye un método diagnóstico y terapéutico fundamental de diversas formas de presentación de la neurocisticercosis, gracias a su versatilidad de abordaje vía ventricular, transnasal y parenquimal. La Neurocisticercosis extraparenquimal es capaz de producir fístula de duramadre y erosión ósea, por lo que en nuestro medio la debemos tomar en cuenta en el diagnóstico diferencial de fístula de líquido cefalorraquídeo.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Amaral L, Maschietto M, Maschietto R, Cury R, Ferreira NF, Mendonca R, Lima SS. Unusual manifestations of neurocysticercosis in MR imaging: Analysis of 172 cases. *Arq Neuropsiquiatr*. 2003;61: 533-41.
2. Sanchez-Larsen A, Monteagudo M, Lozano-Setien E, et al. Neurocysticercosis racemosa subaracnoidea gigante y ventricular: a propósito de un caso. *Rev Argent Microbiol*. 2015;47(3):201-205
3. Kumar S, Thakur S, Jhobta A, Sood RG. Giant racemose neurocysticercosis with mass effect: Unusual presentation. *Ann Indian Acad Neurol*. 2013;16: 398-9.
4. Bickerstaff E, Cloake P, Hughes B, Smith W. The racemose form of cerebral cysticercosis. *Brain*. 1952;75(1):116
5. Cardenas G, Jung H, Rios C, Fleury A, Soto-Hernandez JL. Severe cysticercal meningitis: clinical and imaging characteristics. *Am J Trop Med Hyg* 2010,82(1):121-125.
6. Barinagarrementeria F, Del Brutto OH. Lacunar syndrome due to neurocysticercosis. *Arch Neurol* 1989;46: 415-417.
7. Soto-Hernandez JL, Gomez-Llata Andrade S, Rojas-Echeverri LA, Texeira F, Romero V. Subarachnoid hemorrhage secondary to a ruptured inflammatory aneurysm: a possible manifestation of neurocysticercosis: case report. *Neurosurgery* 1996;38: 197-199; discussion199-200.
8. Ciampi de Andrade D, Rodrigues CL, Abraham R, Castro LH, Livramento JA, Machado LR, et al. Cognitive impairment and dementia in neurocysticercosis: a cross-sectional controlled study. *Neurology* 2010;74:1288-1295.
9. Del Brutto OH, Guevara J, Sotelo J. Intracellular cysticercosis. *J Neurosurg* 1988;69: 50-60
10. Rafael H, Gómez S. Intracellular cysticercosis. *J Neurosurg*1985; 63: 975-97
11. Arriada N, Celis M, Higuera J, Corona T. Imaging Features of Sellar Cysticercosis: Case Report. *Am J Neuroradiol* 24:1386-1389, 2003
12. Suastegui R, Soto-Hernández J, Sotelo J. Effects of prednisone on ventriculoperitoneal shunt function in hydrocephalus secondary to cysticercosis: a preliminary study. *J Neurosurg* 1996; 84: 629-33.
13. Rohan R, Anish-Mehta, Srinivasa-Rangasetty. Extraparenchymal (Racemose) Neurocysticercosis and Its Multitude Manifestations: A Comprehensive Review. *J Clin Neurol* 2015;11 (3):203-211. Bangalore, Karnataka, India. <http://dx.doi.org/10.3988/jcn.2015.11.3.203>.
14. Takayanagui OM, Odashima NS. Clinical aspects of neurocysticercosis. *Parasitol Int* 2006;55 Suppl:S111-S115.
15. Lobato R, Lamas E, Portillo J, Roger R, Esparza J, Rivas J, et al. Hydrocephalus in cerebral cysticercosis. Pathogenic and therapeutic considerations. *J Neurosurg* 1981;55: 786-793.
16. Spyros Sgouros, Neuroendoscopy, *Curren status and future trend based in the 5th World Congress of Neuroendoscopy in Athens, Greece. 2009*. Page 49. 4-5.

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 en este artículo.

Contribución de los autores

Concepción y diseño: Flores D, Malca J. Redacción del artículo: Flores D. Revisión crítica del artículo: Flores D. Revisó la versión reenviada del artículo: Flores D. Aprobó la versión final del artículo en nombre de todos los autores: Flores D.

Correspondencia

José Daniel Flores Sanchez. Departamento de Neurocirugía. Hospital Guillermo Almenara. Av Grau Nro 800. La Victoria. Lima 13, Perú. Correo electrónico: jdannister@gmail.com