

MANEJO ENDOVASCULAR EXITOSO DE UN ANEURISMA CEREBRAL ROTO EN UN PACIENTE LACTANTE

Successful endovascular management of a ruptured cerebral aneurysm in an infant patient

JOHN VARGAS U.^{1a}, JESÚS FLORES Q.^{1b}, RODOLFO RODRÍGUEZ V.^{1b}, WALTER DURAND C.^{1b}, DANTE VALER G.^{1b}

¹Servicio de Neurorradiología del Departamento de Neurocirugía del Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima, Perú. ^aResidente de Neurocirugía, ^bNeurocirujano Endovascular

RESUMEN

Introducción: Los aneurismas cerebrales en edad pediátrica son muy raros. En la infancia temprana se presentan antes de los 2 años y están relacionados con alta incidencia de lesiones a lo largo de la arteria cerebral media, en su parte distal y también en el sistema vertebro-basilar. La etiología puede ser idiopática, traumática y micótica. La obliteración del aneurisma debe ser lo más temprano posible en los pacientes con bajo riesgo quirúrgico.

Caso Clínico: Se presenta el caso de una paciente de 5 meses de edad, sin antecedentes médicos de importancia, con tiempo de enfermedad de 2 días, signos de irritabilidad, vómitos y tensión en la fontanela. Se le realizó una tomografía cerebral donde se evidenció una hemorragia subaracnoidea fina frontal subcortical a predominio derecho y una Angiotomografía (AngioTEM) que mostró un aneurisma de la arteria cerebral anterior. El estudio de angiografía cerebral evidenció un aneurisma disecante del segmento A2-A3 izquierdo que involucraba la división de la arteria cerebral anterior izquierda en arteria pericallosa y callosa marginal. Se realizó una embolización utilizando 4 coils e Histoacryl® para cerrar la arteria parental. Presentó una crisis convulsiva a causa de un infarto callosa marginal izquierdo que se controló médicamente. La evolución clínica fue buena siendo dado de alta al 7mo día de hospitalización.

Conclusión: Los aneurismas cerebrales pediátricos son una patología rara y en pacientes con bajo riesgo quirúrgico como nuestra paciente deben ser tratados a brevedad posible para disminuir la morbimortalidad.

Palabras Clave: Aneurisma Intracraneal, Angiografía cerebral, Lactante, Embolización Terapéutica. (Fuente: DeCS Bireme)

ABSTRACT

Introduction: Cerebral aneurysms in pediatric age are rare. In early childhood they appear before the age of 2 years and are related to a high incidence of injuries along the middle cerebral artery, in its distal part and in the vertebrobasilar system. The etiology can be idiopathic, traumatic, and fungal. Aneurysm obliteration should be as early as possible in patients with low surgical risk.

Clinical Case: The case of a 5-month-old patient with no significant medical history is presented, with a 2-day illness time, signs of irritability, vomiting and tension in the fontanelle. A cerebral tomography was performed showing a predominantly right subcortical frontal fine subarachnoid hemorrhage and an angio-tomography (Angio-TEM) that showed an aneurysm of the anterior cerebral artery. The cerebral angiography study revealed a dissecting aneurysm of the left A2-A3 segment that involved the division of the left anterior cerebral artery into a pericallosal and marginal callus artery. An embolization was performed using 4 coils and Histoacryl® to close the parental artery. He had a seizure crisis from a left marginal callus infarction that was medically controlled. The clinical evolution was good, being discharged on the 7th day of hospitalization.

Conclusion: Pediatric cerebral aneurysms are a rare pathology and in patients with low surgical risk, such as our patient, they should be treated as soon as possible to decrease morbidity and mortality.

Keywords: Intracranial Aneurysm, Cerebral Angiography, Infant, Embolization Therapeutic. (Source: MeSH NLM)

Peru J Neurosurg 2020, 2 (2): 55-60

Los aneurismas cerebrales en edad pediátrica son muy raros, siendo el primer caso descrito en 1871 por Eppinger en una necropsia de una paciente de 15 años. Se sabe que, en los pacientes adultos la formación de aneurismas cerebrales

tiene asociación con diabetes, alcohol, tabaquismo, obesidad, uso de anticonceptivos orales e hipertensión arterial, pero no ocurre lo mismo en niños, por ello muchos autores les dan más importancia a los factores genéticos en el desarrollo de aneurismas en la edad pediátrica. ^{1, 2}

Enviado : 21 de marzo del 2020

Aceptado: 20 de abril del 2020

COMO CITAR ESTE ARTICULO: Vargas J, Flores-Q J, Rodríguez R, Durand W, Valer D, Saal-Zapata G.

Manejo endovascular exitoso de un aneurisma cerebral roto en un paciente lactante. *Peru J Neurosurg* 2020; 2(2): 55-60

La incidencia de aneurismas pediátricos se estima en 1 a 3 casos por cada millón de personas. En la infancia, se presentan más antes de los 2 años y están relacionados con una alta incidencia de lesiones a lo largo de la arteria cerebral media en su parte distal y también en el sistema vertebro-basilar. Además, se ha visto que los aneurismas en la edad pediátrica son más frecuentes en varones, con una razón de 1.3 a 2.8:1, así como también se ha notado que hasta el 62% de los aneurismas gigantes se presentan en varones.^{1,3}

El tratamiento de los aneurismas a esta edad se puede realizar tanto por vía quirúrgica como endovascular sin embargo el tratamiento quirúrgico puede conllevar un mayor riesgo debido a que pérdida sanguínea es una limitante importante a esta edad, de ahí que el clipaje del aneurisma sólo se da en el 29.5% de los casos. Por ello un alto porcentaje de pacientes pediátricos requiere de procedimientos innovadores para cerrar estas lesiones.^{1,4}

Se presenta el caso de una lactante paciente de 5 meses de edad con un aneurisma disecante del territorio de la cerebral anterior (segmento A2-A3) que fue tratado exitosamente por vía endovascular en el Servicio de Neurorradiología del Hospital Almenara.

CASO CLÍNICO

Historia y examen: Paciente lactante mujer de 5 meses, procedente de Lima, sin antecedentes médicos de importancia. El tiempo de enfermedad fue de 2 días caracterizado por de irritabilidad y vómitos de contenido lácteo en 10 oportunidades por lo que fue traída a emergencia de este hospital. Al examen, la paciente presentaba mayor tendencia al sueño, escala de Glasgow (EG): 14, sin déficit motor, pupilas isocóricas y reactivas, fontanela anterior ligeramente tensa. Se sospecha de encefalitis, por lo cual le realizan una tomografía cerebral (TAC) sin contraste donde se evidencia una hemorragia subaracnoidea cortico subcortical a nivel frontal bilateral a

predominio derecho. Se realiza una angiotomografía (angioTEM) cerebral donde se evidencia un aneurisma displásico que depende del segmento A2 de la arteria cerebral anterior derecha (Fig 1).

Tratamiento endovascular: Se realizó una panangiografía cerebral al tercer día del ingreso, se le colocó un introductor 4Fr en la arteria femoral derecha, bajo técnica de Seldinger, luego con un catéter guía Fargo Mini 4.2Fr® asistido con guía hidrofílica Poseidón 150cm® se realizó una angiografía de arteria carótida interna (ACI) bilateral y arteria vertebral izquierda en incidencias antero posterior, lateral y oblicua, así como estudio 3D de ACI izquierda, donde se evidenció un aneurisma disecante, displásico, de A2-A3 izquierdo, que involucraba la división de la arteria cerebral anterior (ACA) izquierda en la arteria pericallosa y callosa marginal (Fig 2), de 13.67x4.57 mm.

Luego se procedió a embolizar el aneurisma, para lo cual se navegó con microcatéter Headway Duo® asistido con microguía Traxcess 14® hasta llegar el domo mismo del aneurisma a través de la ACA izquierda, donde se procedió a embolizar con coils, primero con un Axium Prime® de 6mmx10cm, luego un Microplex 10® de 4mmx12cm, seguido de una Microplex 10® de 4mmx12cm y un último cuarto coil Microplex 10® de 3mmx8cm (Fig 3).

Debido a la fisiopatología del origen de este aneurisma, se decidió cerrar la arteria de donde se originaba el aneurisma para evitar la recanalización, por lo que se embolizó con 0.2mL de una dilución de Histoacryl® con Lipiodol® de 1:2, logrando cerrar la arteria callosa marginal izquierda. Se realizaron controles angiográficos donde se evidenció el aneurisma embolizado Raymond Roy I (Fig 4).

Evolución clínica: La paciente fue transferida a la unidad de cuidados intensivos (UCI) pediátrica donde permaneció con EG: 15 puntos, sin déficit motor ni sensitivo, pupilas isocóricas y fotorreactivas, pares craneales sin alteraciones y fontanela ligeramente tensa. Se le realizó una TAC cerebral sin contraste donde se evidenció material de embolización

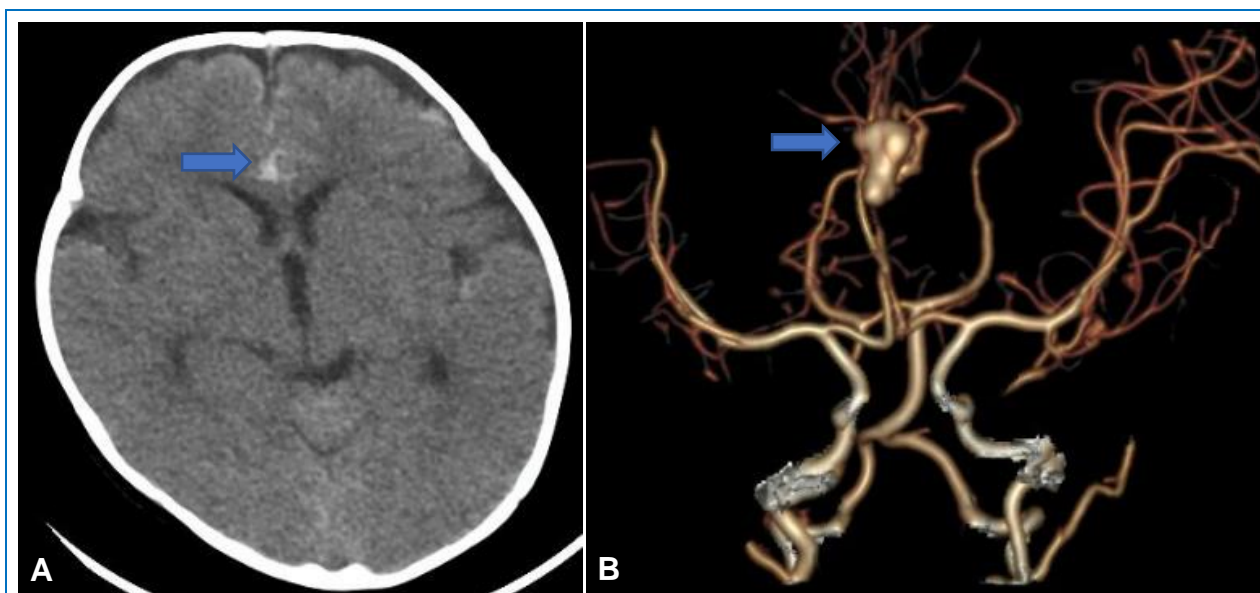


Fig 1. (A) TAC cerebral sin contraste en corte axial donde se evidencia hemorragia subaracnoidea a predominio subcortical a nivel interhemisférico bifrontal, a predominio del lado derecho (flecha azul). **(B)** Reconstrucción 3D de angiotomografía cerebral, donde se evidencia aneurisma displásico, a nivel de las arterias callosa marginal (flecha azul)

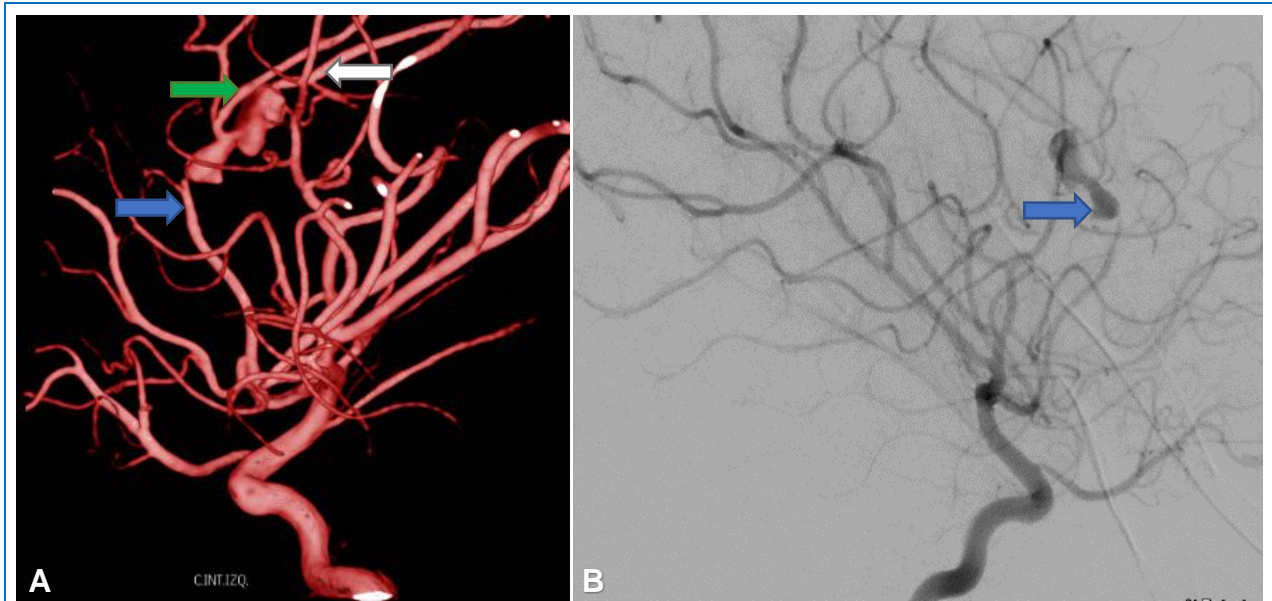


Fig 2. (A) Angiografía 3D de la ACL izquierda donde se evidencia una aneurisma disecante en la bifurcación de la arteria cerebral anterior (flecha azul) en la arteria pericallosa (flecha blanca) y la arteria callosa marginal (flecha verde). **(B)** Angiografía por sustracción digital en vista lateral donde se evidencia aneurisma disecante de la arteria cerebral anterior izquierda (flecha azul).

en territorio de la ACA izquierda, sin hallazgos anormales. En el cuarto día posoperatorio la paciente presentó una crisis convulsiva, y en la TAC cerebral sin contraste se evidenció un infarto del territorio de la arteria callosa marginal izquierda, pero sin evidencia clínica de déficit motor (Fig 5). La paciente continuó con buena evolución, sin crisis convulsivas, por lo que fue dada de alta en el día 7 del posoperatorio.

DISCUSIÓN

Los aneurismas cerebrales en niños son una patología rara, siendo más frecuentes por debajo de los 2 años.¹ La ubicación más común es la bifurcación carotídea, que se puede encontrar entre el 29 al 54% de los casos, comparado con los adultos que es del 4.4 a 4.5%. Así también, la presencia de aneurismas múltiples en niños es más raro (4-5%) que en los adultos (15%), y en caso se presentaran estos estarían relacionados a irradiación craneal, enfermedad de Moya-Moya, anemia drepanocítica, mixoma cardíaco, MAV o displasia fibromuscular.^{1,4}

Respecto a la etiología, los aneurismas pediátricos pueden ser de etiología idiopática, traumática o infecciosa (aneurismas micóticos). Hay mucha controversia sobre la naturaleza idiopática de los aneurismas, pero en los estudios cadavéricos se evidencia fragmentación de la membrana elástica interna y de la capa muscular de la media. En el domo del aneurisma la capa muscular está ausente, pero la membrana elástica interna se continúa a lo largo del cuello de la lesión. Además, frecuentemente la membrana basal bajo el endotelio es delgada y reticulada. El sitio de ruptura del aneurisma es en su ápice e imita un pequeño divertículo, muy similar a los aneurismas saculares de los adultos.^{2,4}

Los aneurismas en la infancia se han relacionado con varias enfermedades vasculares del colágeno y del tejido conectivo, donde se conoce que el colágeno tipo I y tipo III predomina en la circulación intracraneal y les da mayor soporte a los vasos sanguíneos. Ostergaard postula la que deficiencia del

colágeno tipo III produce aumento de la distensibilidad de la pared del vaso sanguíneo, de ahí una mayor tendencia a un tamaño más grande en los aneurismas en la infancia.¹ La degeneración ateromatosa y los factores hemodinámicos son factores asociados con la formación de aneurismas, pero estos factores son raros en niños. La hipertensión arterial en niños se puede ver en asociación con la coartación aórtica y la enfermedad poliúística renal, por ello si coexisten no debería descartarse la posibilidad de esta entidad como agente etiológico.^{3,5}

En pacientes con historia de trauma craneal cerrado, el daño traumático de la pared del vaso sanguíneo puede generar la formación de un aneurisma. Este tipo de aneurismas tienen ubicaciones específicas, como la arteria cerebral anterior y sus ramas distales por daño a lo largo de la hoz, la arteria cerebral posterior cerca del borde libre del tentorio, arteria cerebral media a lo largo de su curso por el ala esfenoidal. Los aneurismas traumáticos verdaderos tienen una sola capa intacta de adventicia sin seguir las capas clásicas de la disrupción. Los aneurismas traumáticos falsos resultan de una organización fibrosa alrededor de un hematoma primario que envuelve un vaso parental, el cual se puede desarrollar en casos de fracturas de cráneo deprimidas o en injurias penetrantes.^{2,4}

El término micótico originalmente fue dado por Osler en 1885, pero la mayoría de los aneurismas infecciosos en la infancia son dados por bacterias más que por hongos. Los hongos más implicados en el desarrollo de aneurismas fueron *Aspergillus*, *Candida* y *Phycomycetes*, en orden descendente de frecuencia. Estos pacientes por lo general son inmunocomprometidos y tenían una mortalidad cercana al 100%. Lo más frecuente es que sea por diseminación hematogénica desde una endocarditis, pero también puede ser por extensión directa desde un nido de infección adyacente. Las bacterias implicadas fueron alfa estreptococo, estafilococo, *Pseudomonas* y *Haemophilus*. El tiempo desde el evento embólico hasta la formación de aneurisma es muy corto, por lo general 2 días hasta la hemorragia según el modelo de Molinari.¹

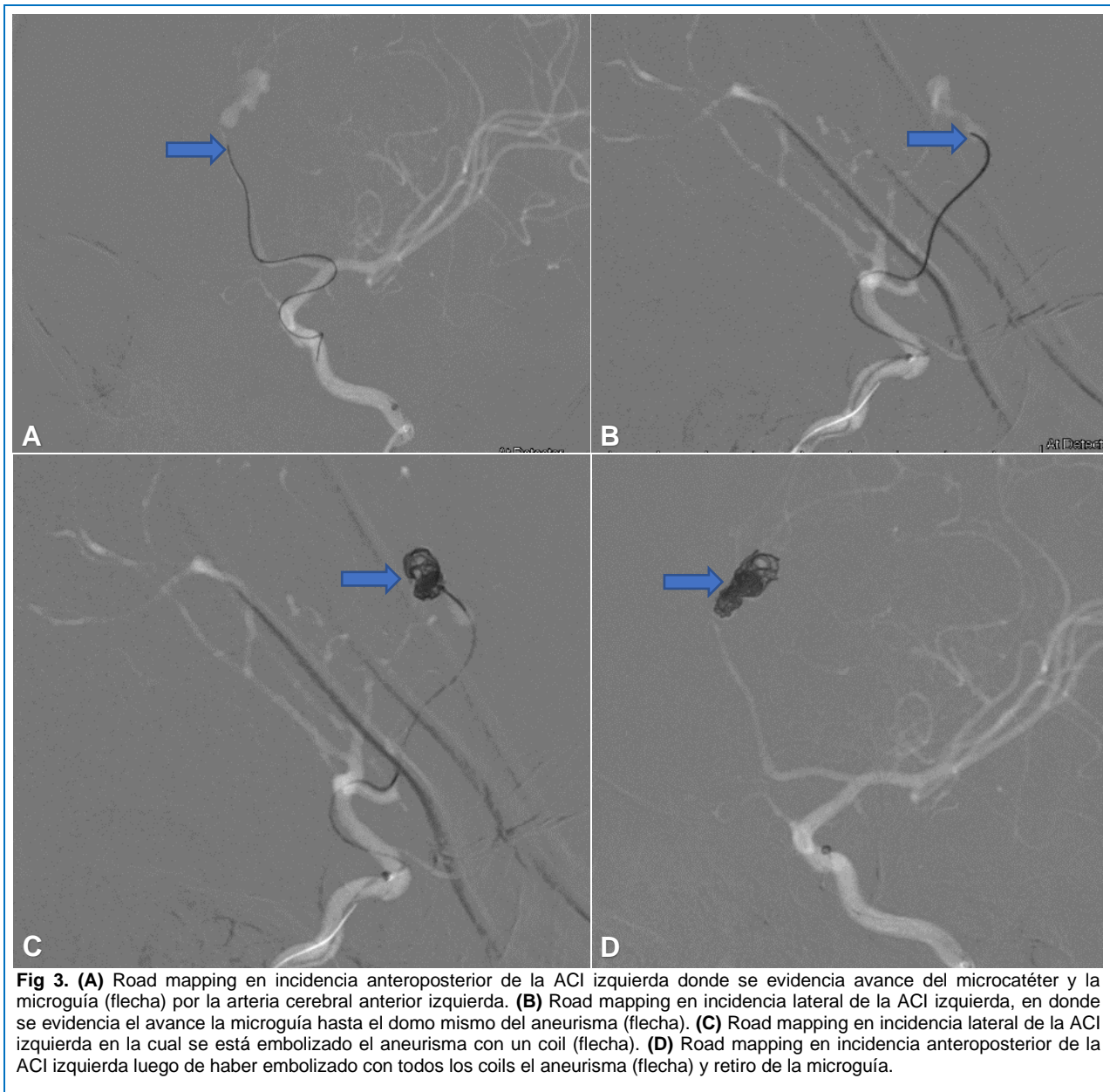


Fig 3. (A) Road mapping en incidencia anteroposterior de la ACI izquierda donde se evidencia avance del microcatéter y la microguía (flecha) por la arteria cerebral anterior izquierda. (B) Road mapping en incidencia lateral de la ACI izquierda, en donde se evidencia el avance la microguía hasta el domo mismo del aneurisma (flecha). (C) Road mapping en incidencia lateral de la ACI izquierda en la cual se está embolizado el aneurisma con un coil (flecha). (D) Road mapping en incidencia anteroposterior de la ACI izquierda luego de haber embolizado con todos los coils el aneurisma (flecha) y retiro de la microguía.

En nuestro paciente la ubicación del aneurisma de la ACA y distal nos orientaba a que era un aneurisma traumático, aunque no existía el antecedente de trauma craneal cerrado.

En los pacientes que hayan sido diagnosticados de hemorragia subaracnoidea (HSA) el manejo médico inicial es importante para estabilizar al paciente, pues dentro de las primeras 48 horas la complicación más seria es el resangrado. La colocación de derivación ventrículo peritoneal (DVP) en hidrocefalia está indicado, pero existe controversia si colocarlo antes de tratar el aneurisma, ya que esto genera cambios en la presión transluminal con posible resangrado del aneurisma debido a ello. ^{8, 9}

El uso de nimodipino en niños es limitado, pero en adultos se ha visto que disminuye la incidencia de déficit neurológico severo por vasoespasmio. En caso se evidencie vasoespasmio clínico en niños es preferible usar expansión de volumen, terapia hiperdinámica con vasopresores e inotrópicos. Hay que prevenir además otras complicaciones médicas como la hiponatremia porque puede exacerbar el

deterioro de conciencia y aumentar la actividad epileptogénica. ^{11, 12}

Se ha visto que en niños puede existir trombosis espontánea del aneurisma, por ello dentro de las posibilidades está el manejo conservador, pero múltiples estudios han demostrado que estos pacientes tienen peor pronóstico. Este pronóstico mejora si se opta por un manejo microquirúrgico o endovascular a la brevedad posible. En casos de aneurismas micóticos, el tratamiento conservador con antibióticos puede ser razonable, pero también puede optarse por el manejo quirúrgico. Si el paciente tiene múltiples aneurismas con enfermedad cardíaca preexistente y endocarditis, es mejor el manejo conservador debido al alto riesgo quirúrgico. Los aneurismas suelen desaparecer luego de 2 a 3 semanas de tratamiento médico en estos casos. ¹

La obliteración del aneurisma debe ser lo más temprano posible en los pacientes con bajo riesgo quirúrgico, pero en los de alto riesgo quirúrgico el tratamiento temprano es controversial y se prefiere esperar luego de 7 a 14 días de la

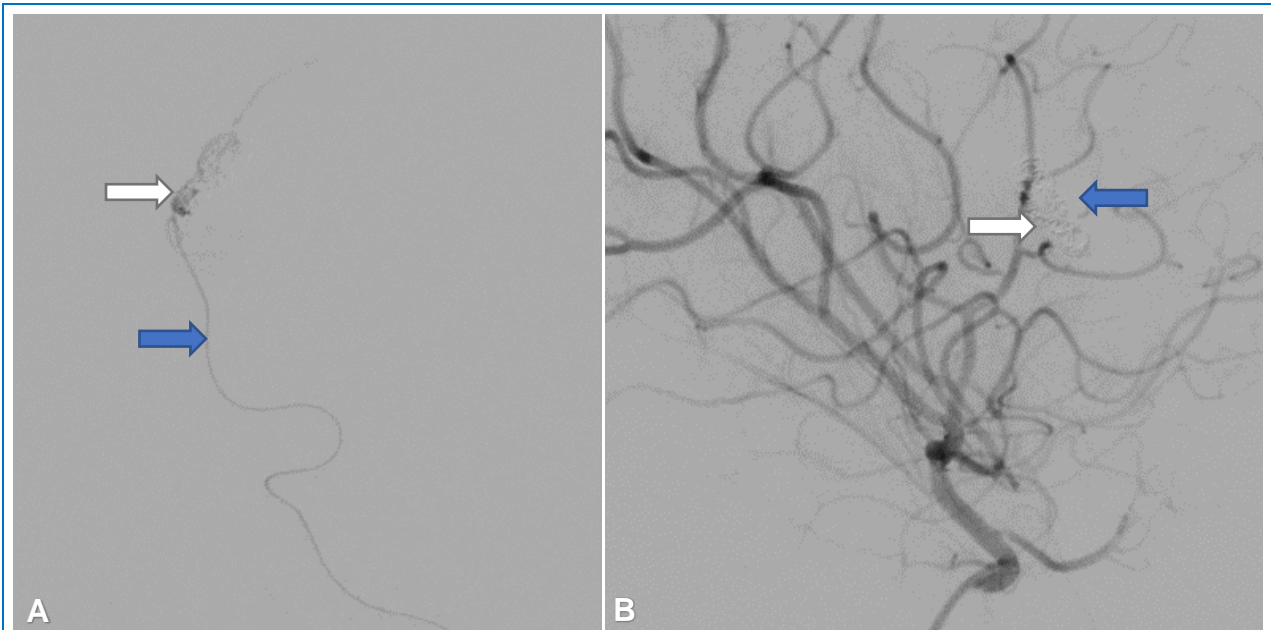


Fig 4. (A) Angiografía en incidencia anteroposterior de la ACI izquierda, en la cual se evidencia el recorrido del microcatéter (flecha azul) y la embolización con Histoacryl de la rama de donde nació el aneurisma disecante (flecha blanca). **(B)** Angiografía en incidencia lateral de la ACI izquierda en la que se evidencia ausencia del aneurisma (flecha blanca) y ausencia de la arteria callosa marginal (flecha azul).

HSA, lo cual permite mayor estabilización del paciente enfermo, resolución del edema cerebral y del vasoespasmo, reduciendo así la morbimortalidad.^{1,3}

En nuestro paciente, se requería reconocer mejor las características del aneurisma para proceder a tratarlo a brevedad posible, y debido a las estructuras anatómicas pequeñas el tratamiento era más complejo. El tratamiento microquirúrgico era una posibilidad, pero había que tener en consideración que, la pérdida sanguínea en los lactantes

es crucial y puede generar descompensación con volúmenes pequeños de pérdida. De ahí que el clipaje del aneurisma sólo se realice en el 29,5% de los casos.^{1,4}

Por lo antes mencionado, en nuestro paciente se optó por el manejo endovascular, y debido a la fisiopatología al ser un aneurisma disecante se tuvo que sacrificar una arteria. Afortunadamente ello no produjo mayores repercusiones clínicas puesto que como se sabe los niños poseen neuroplasticidad neuronal, lo cual ayuda a mejorar el

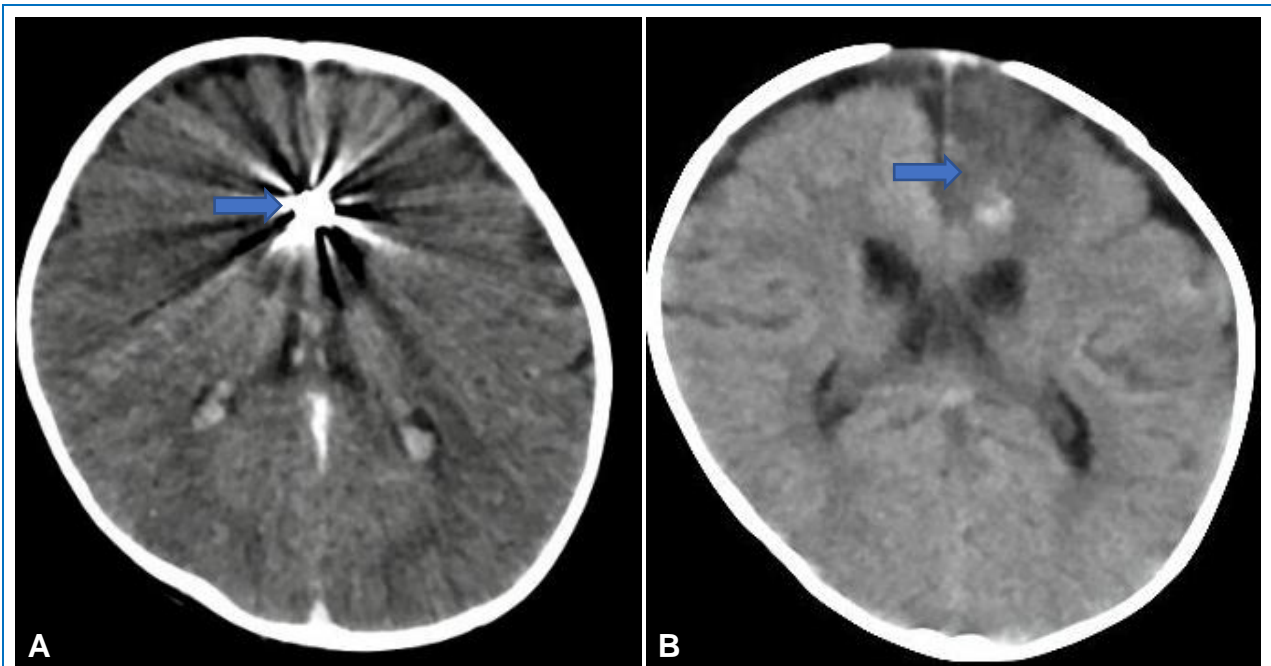


Fig 5. (A) TAC cerebral sin contraste en corte axial donde se evidencia la hiperrefringencia del material de embolización en el territorio del segmento A2-A3 izquierda (flecha azul). **(B)** TAC cerebral sin contraste en corte axial donde se evidencia el infarto en territorio de la arteria pericallosa izquierda (flecha azul) que no originó mayor repercusión clínica

pronóstico de estos pacientes.^{12, 13} El infarto pequeño que se produjo en el posoperatorio constituía un foco epileptógeno por lo que los anticonvulsivantes se continuaron para evitar las crisis convulsivas posteriores en la niña, pero a pesar de dicho inconveniente, la paciente cursó con buena evolución clínica y fue dada de alta dentro de la primera semana del evento.

CONCLUSIÓN

Los aneurismas cerebrales pediátricos son una patología rara, siendo necesario determinar su etiología para dar lugar un tratamiento adecuado. En pacientes con bajo riesgo quirúrgico debe tratarse el aneurisma a la brevedad posible disminuyendo así la morbimortalidad del paciente, y este tratamiento puede ser llevado a cabo mejor por vía endovascular pues este tipo de abordaje disminuye la estancia hospitalaria y las complicaciones asociadas a ello.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Levy M, Levy D, Manna B. Pediatric cerebral aneurysm. StatPearls Publishing LLC. 2014; 12(1).
2. Aeron G, Abruzzo TA, Jones BV. Clinical and imaging features of intracranial arterial aneurysms in the pediatric population. **Radiographics**. 2012 May-Jun;32(3):667-81.
3. Burke MJ. Occult aneurysmal hemorrhage in a child. Case report and literature review. **Pediatr Neurosurg**. 2000 Nov;33(5):274-277.
4. Manz HJ, Vester J, Lavenstein B. Dissecting aneurysm of cerebral arteries in childhood and adolescence. Case report and literature review of 20 cases. **Virchows Arch a Pathol Anat Histol**. 1979 Oct;384(3):325-35.
5. Vaicys C, Hunt CD, Heary RF. Ruptured intracranial aneurysm in an adolescent with Alport's syndrome--a new expression of type IV collagenopathy: case report. **Surg Neurol**. 2000 Jul;54(1):68-72.
6. Beyens A, Albuissou J, Boel A, Al-Essa M, Al-Manea W, Bonnet D, Bostan O et Al. Arterial tortuosity syndrome: 40 new families and literature review. **Genet. Med.** 2018 Oct;20(10):1236-1245.
7. Ostergaard JR. Aetiology of intracranial saccular aneurysms in childhood. **Br J Neurosurg**. 1991;5(6): 575-80.
8. Kanaan I, Lasjaunias P, Coates R. The spectrum of intracranial aneurysms in pediatrics. **Minim Invasive Neurosurg**. 1995 Mar;38(1):1-9.
9. Koroknay-Pál P, Niemelä M, Lehto H, Kivisaari R, Numminen J, Laakso A, Hernesniemi J. De novo, and recurrent aneurysms in pediatric patients with cerebral aneurysms. **Stroke**. 2013 May;44(5):1436-9.
10. Chen R, Zhang S, Guo R, Ma L, You C. Pediatric intracranial distal arterial aneurysms: report of 35 cases. **Acta Neurochir (Wien)**. 2018 Aug;160(8):1633-1642.
11. Chen R, Zhang S, Guo R, You C, Ma L. Pediatric Intracranial Pseudoaneurysms: A Report of 15 Cases and Review of the Literature. **World Neurosurg**. 2018 Aug;116: e951-e959.
12. Sujijantarat N, Pierson MJ, Kemp J, Coppens JR. Staged Trapping of Traumatic Basilar Trunk Pseudoaneurysm: Case Report and Review of Literature. **World Neurosurg**. 2017 Dec;108: 991.e7-991.e12.
13. Munakomi S, Tamrakar K, Chaudhary P, Bhattarai B, Cherian I. Case Report: Traumatic anterior cerebral artery aneurysm in a 4-year old child. **F1000Res**. 2015; 4:804.
14. Flores BC, Patel AR, Braga BP, Weprin BE, Batjer HH. Management of infectious intracranial aneurysms in the pediatric population. **Childs Nerv Syst**. 2016 Jul;32(7):1205-17.
15. Vávřova M, Jonszta T, Czerný D, Hrbac T, Lipina R, Klement P, Procházka V. Endovascular treatment of mycotic pseudoaneurysms. **VASA**. 2010 Aug;39(3): 256-61.

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: Todos los autores. *Redacción del artículo:* Vargas. *Revisión crítica del artículo:* Flores, Rodríguez. *Revisó la versión reenviada del artículo:* Vargas. *Aprobó la versión final del artículo en nombre de todos los autores:* Vargas.

Correspondencia

John Vargas Urbina. Departamento de Neurocirugía. Hospital Nacional Guillermo Almenara. Av Grau Nro 800. La Victoria. Lima 13, Perú. Correo electrónico: johnkilin27@hotmail.com