Caso CLÍNICO Rev Med Hondur 2007; 75:133-137

# Fístula carótido cavernosa con epilepsia: manejo mediante embolización endovascular y resección de foco epileptógeno

Carotid-cavernous fistula with epilepsy: management by endovascular embolization and resection of epileptic focus

Tulio Murillo,\* Reyna M. Durón,† Osly Vásquez,‡ Jeaneth Bu-Figueroa,§ Moisés Nazar,§ Mauricio Perdomo‡, Abel Vásquez,∥ Kenton Holden¶

RESUMEN. Se presenta el caso de una paciente quién sufrió trauma craneal por proyectil de arma de fuego que se alojó en la base del cráneo. El proyectil seccionó la arteria carótida interna izquierda provocando una fístula carótido-cavernosa que tuvo la clásica presentación de soplo ocular (tinitus pulsátil), proptosis e inyección conjuntival. La paciente también presentó epilepsia parcial postraumática con crisis diarias de difícil control. Se realizó tratamiento quirúrgico combinado mediante terapia endovascular con embolización mediante filamentos de platino y craneotomía pterional izquierda para resección de foco epileptógeno temporal izquierdo. La paciente evolucionó con buen control de las crisis desde el punto de vista vascular y oftalmológico y con control total de las crisis epilépticas. Este es el primer caso de terapia endovascular para fístula carótido-cavernosa publicado en Honduras.

Palabras clave: Fístula carótido-cavernosa. Epilepsia, embolización.

Correspondencia a: Dr. Tulio Murillo, Departamento de Neurocirugía, Hospital Escuela, Tegucigalpa, Honduras. Email: tuliomurillo@hotmail.com

SUMMARY. We present the case of a patient who suffered cranial trauma from a gunshot with a bullet that remained in the cranial base. The bullet sectioned the left internal carotid artery causing a carotid-cavernous fistula which presented with the typical clinical picture of ocular bruit (pulsatile tinnitus), proptosis and conjunctival edema. The patient also presented posttraumatic partial epilepsy with daily seizures difficult to control. Combined treatment was done by endovascular embolization with coils and left pterional craniotomy for resection of epileptic focus on the left temporal lobe. The patient evolved favorably with good seizure control the vascular and ophthalmological point of view and with complete control of epileptic seizures. This is the first case of endovascular treatment for carotid-cavernous fistula published in Honduras.

Keywords: carotid cavernous fistula. Epilepsy. Embolization.

### INTRODUCCIÓN

La fístula carótido-cavernosa (FCC) es una comunicación anómala entre el seno cavernoso y el sistema de la arteria carótida, lo que causa paso anormal de sangre arterial hacia el complejo venoso del seno cavernoso. Esta comunicación ocurre por ruptura espontánea o traumática de la pared de la carótida interna intracavernosa o bien por

Neurocirujano Intervencionista, Neurooncólogo, Departamento de Neurocirugía Hospital Escuela

<sup>†</sup> Neuróloga, Epileptóloga, Honduras Medical Center

<sup>‡</sup> Neurocirujano, Departamento de Neurocirugía Hospital Escuela

<sup>§</sup> Neurorradióloga, Postgrado de Neurología, UNAH

Residente de Neurocirugía, Postgrado de Neurocirugía, Hospital Escuela

<sup>¶</sup> Greenwood Genetic Center, Greenwood, South Carolina and Departments of Neurosciences (Neurology) and Pediatrics, Medical University of South Carolina, Charleston, South Carolina, U.S.A.

las ramas meníngeas de la carótida interna o externa. Las FCC pueden clasificarse según varios criterios. Según la etiología pueden ser traumáticas y espontáneas. Según criterios arteriográficos pueden ser directas y durales. Según criterios hemodinámicas pueden ser fístulas de alto flujo y bajo flujo. Aproximadamente el 75% de las FCC son traumáticas (más frecuentes en varones jóvenes) y el 25% espontáneas (más frecuentes en mujeres y en edad más avanzada).<sup>1,2</sup>

Esta patología raramente amenaza la vida pero las manifestaciones oculares pueden dar lugar a secuelas permanentes.<sup>3</sup> Los síntomas más comunes resultan del flujo retrógrado generado en el sistema venoso: exoftalmos con proptosis pulsátil y soplo órbito-palpebral, junto con diplopia por afectación de los nervios oculomotores. El paciente también puede quejarse de que el soplo persiste como un ruido constante en su cabeza que le molesta sobre todo para dormir, dolor ocular y cefalea que no mejora con analgésicos. Desde el punto de vista terapéutico, más de 50% de las fístulas de bajo flujo se resuelven espontáneamente, por lo que en estos casos el abordaje es la observación. En cambio, las de alto flujo requieren manejo más agresivo, mediante la embolización vía catéteres intravasculares.<sup>4,5</sup>

En este reporte presentamos el caso de una paciente con FCC postraumática en comorbilidad con epilepsia, cuyo manejo fue exitoso mediante terapia endosvascular más craneotomía para resección de foco epiléptico. Este constituiría el primer caso de fístula carótido-cavernosa resuelta con terapia endovascular publicado en Honduras.

## CASO CLÍNICO

Se recibió en la emergencia del Hospital Escuela una paciente femenina, diestra, de 17 años quien sufrió un trauma craneal con herida por proyectil de arma de fuego, el cual infringió la cara y se alojó en la base del cráneo del lado izquierdo (Fig. No. 1). El proyectil causó fractura de varios huesos faciales, especialmente el cigomático y la órbita, seccionó la arteria carótida interna (ACI) del lado izquierdo provocando de inmediato una fístula carótido—cavernosa (FCC) de ese lado. La paciente fue recibida en la emergencia con convulsiones y coma. Posteriormente, la paciente refirió la clásica presentación progresiva de cefalea, soplo ocular (tinitus pulsátil), proptosis e inyección

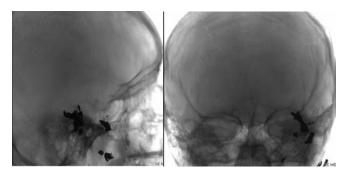


Figura No 1. La fluoroscopía preoperatoria en proyección lateral y posteroanterior de cráneo muestra el trayecto del proyectil que infringe la región malar izquierda dejando esquirlas en su trayecto hasta su destino final en la región petro cavernosa intracraneal. El proyectil fragmentado se aloja en la base temporal y el peñasco del hueso temporal izquierdo.



Figura No 2. Fotografía preoperatoria que muestra proptosis, quemosis, midriasis y paresia del músculo recto externo en ojo izquierdo.

conjuntival (Fig. No. 2). Al examen físico había además papiledema, midriasis y paresia de los músculos oculomotores en ojo izquierdo. El examen sensitivo mostró además ausencia de reflejo corneal izquierdo e hiperreflexia bilateral de predominio derecho, con Babinski de este lado.

Desde el inicio del cuadro la paciente presentó entre 3 a 4 episodios diarios consistentes en intensa e inexplicable sensación de temor, acompañada de "una canción cantada por un cerdito" que se repetía una y otra vez. De forma infrecuente presentó crisis convulsivas, pero las crisis parciales persistían a pesar de recibir tratamiento combinado de fenitoína con fenobarbital. La evaluación neuropsicológica mostró disfunción fronto-temporal bilateral de predominio izquierdo, incluyendo déficit de memoria verbal. El EEG de superficie mostró lentificación focal y foco epiléptico (como puntas y ondas bifásicas) en región temporal media y posterior izquierda con discreta propagación a región parietal bilateral (Fig. No 3).

Para determinar el daño carotídeo, las estrategias de manejo por vía endovascular, así como opciones viables basa-

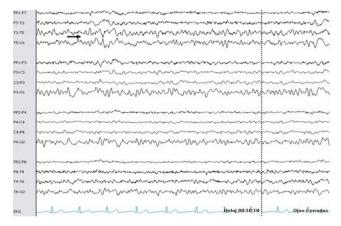


Figura No 3. El EEG mostró lentificación focal y foco epiléptico en región temporal media y posterior izquierda con discreta propagación a región parietal de ese lado y contralateral.

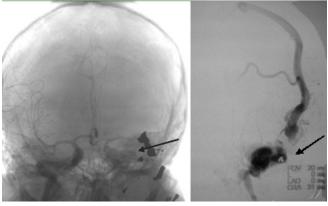


Figura No 4. Angiografía cerebral no substraída proyección postero anterior inyectando desde la arteria carótida interna derecha mientras el ayudante comprime con su mano la arteria carótida interna izquierda en cuello (maniobra de Alcock). Esto reveló flujo cruzado y llenado completo de las ramas distales de la arteria cerebral media izquierda y de manera retrógrada la FCC (flecha).

dos en la anatomía del resto de sus arterias, se realizó una angiografía cerebral diagnóstica (Fig. No 4). Al evidenciar que el proyectil había seccionado la ACI completamente y que esta mantenía absoluta comunicación con el seno cavernoso, determinamos el calibre y el flujo funcional de las arterias del polígono de Wyllis realizando una prueba de tolerancia a la oclusión. Esta prueba consiste en ocluir manualmente (presionando la ACI izquierda) a nivel del cuello al mismo tiempo que el operador inyecta medio de contraste en la ACI derecha. Al ver el comportamiento

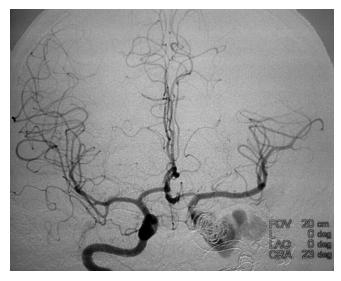


Figura No 5. Angiografía cerebral substraída post operatoria proyección postero anterior inyectando desde la arteria carótida interna derecha. Hay completa oclusión de la arteria y el defecto fistuloso a nivel del seno cavernoso izquierdo mediante la introducción de coils de platino (flecha). El flujo a la arteria cerebral media izquierda se magnifica posterior a la oclusión terapéutica.

angiográfico determinamos si el flujo de medio de contraste llena el lado opuesta del cerebro suficientemente como para sacrificar la arteria ocluida (en este caso la ACI izquierda). Una presión arteria adecuada y un polígono de Wyllis (colaterales cerebrales) generoso en calibre, suelen ser los condicionantes mas importantes para que la tolerancia a la oclusión sea positiva.

Se procedió a colocar dos catéteres endovasculares en cada ACI, uno para realizar inyecciones de contraste (derecho) y otro para introducir los filamentos de platino (coils) para sacrificar el vaso seccionado (Fig. No 5). Al tener la FCC completamente ocluida, se procedió a realizar la última inyección desde la ACI derecha para confirmar la oclusión completa.

En un segundo tiempo quirúrgico se realizó resección del foco epileptógeno. El área a resecar se determinó en base a criterios clínicos, de neuroimagen y de EEG de superficie, los cuales indicaban compromiso temporal posterior, mesial y lateral izquierdo. El aspecto macroscópico y la localización de las esquirlas confirmaron el daño en dicha región, donde se realizó resección mediante craneotomía pterional izquierda y cirugía bajo microscopio.

La evolución posterior a los dos procedimientos realizados fue muy buena, con mejoría progresiva de los síntomas y desaparición total de las crisis parciales límbicas y auditivas presentadas por la paciente. Solamente en una ocasión presentó un episodio convulsivo asociado a omisión de dosis de medicamento. El papiledema y la proptosis se han reducido considerablemente a dos meses del procedimiento, la función visual se ha preservado, el soplo ha desaparecido y la calidad de vida de la paciente ha sido mejorada considerablemente. Una tercera intervención resolverá las secuelas de la fracturas de huesos de la cara. La paciente continúa tratamiento en monoterapia con fenitoína.

# DISCUSIÓN

Como se ejemplifica mediante el caso presentado, la cirugía endovascular es un método moderno más apropiado para manejar las FCC incluida la de origen postraumático. Sin embargo, cuando existen circunstancias especiales que ameriten procedimientos adicionales, se justifica una craneotomía para complementar los fines deseados. En el caso que presentamos, la craneotomía fue necesaria con el objetivo de resecar un foco epiléptico residual al daño causado por la bala y sus fragmentos remanentes en la región temporal izquierda.

Es importante considerar siempre los diferentes tipos de fístulas según etiología. En primer lugar, en las fístulas de tipo directo (de alto flujo) se presenta una comunicación directa entre el tronco principal de la arteria carótida interna y el seno cavernoso. La paciente que describimos presentó una fístula de este tipo, el cual generalmente se asocia a traumatismos severos con fracturas de base de cráneo, así como con traumas quirúrgicos directos, roturas de aneurismas carotídeos intracavernosos, disecciones arteriales o síndromes de deficiencia del colágeno. En segundo lugar, existen las fístulas de tipo indirecto (de bajo flujo o fístulas durales), que carecen de un factor etiológico claro pero que pueden asociarse con ciertas malformaciones de la duramadre. En este caso, se establece comunicación entre las arterias meníngeas (ramas de la arteria carótida externa e interna) y el seno cavernoso; permaneciendo intacta la porción intracavernosa de la arteria carótida interna. Este tipo de fístula puede ocurrir de forma espontánea o asociado a factores predisponentes como hipertensión arterial, trauma, cirugía intracraneal, maniobras de Valsalva, sinusitis y el embarazo. 1-3

El cuadro clínico de la paciente que reportamos fue típico según la literatura médica y la causa traumática era evidente. En otros casos, el diagnóstico diferencial clínico debe considerarse el síndrome del apex orbitario, con el síndrome de la hendidura orbitaria superior, con la trombosis del seno cavernoso y con los hematomas retroorbitarios. Describimos hallazgos de la tomografía, radiología convencional y de la arteriografía por sustracción digital, estudios de imagen que fueron suficientes para determinar el diagnóstico y posterior manejo de la fístula.

En general, la tomografía craneal, la resonancia magnética y la ecografía ocular contribuyen al diagnóstico mostrando dilatación de la vena supraoftálmica y edema de tejidos blandos orbitarios, aumento de densidad de la grasa orbitaria y engrosamiento de los músculos extraoculares. Sin embargo, el diagnóstico se confirma mediante la arteriografía cerebral con cateterización selectiva de carótida interna y externa de ambos lados que demuestra la comunicación anómala. Arteriográficamente se pueden distinguir cuatro tipos de FCC: Tipo A, o directa con comunicación entre la arteria carótida interna y el seno cavernoso, tipo B shunt dural entre ramas meníngeas de la carótida interna y el seno cavernoso; tipo C, shunt dural entre ramas meníngeas de la carótida externa y el seno cavernoso, y tipo D, shunt dural entre ramas meníngeas tanto de carótida interna como externa y el seno cavernoso. 6,7 Nuestra paciente presentó una fístula tipo A.

El tratamiento quirúrgico con ligadura de la carótida interna o cirugía intracraneal son métodos tradicionales practicados en todo el mundo y nuestro país no ha sido la excepción, pero el adelanto tecnológico permite que también en Honduras, dichos métodos sean sustituidos por el método endovascular, el cual tiene menos complicaciones.8 En cuanto a FCC no traumáticas, alrededor de la mitad de las fístulas durales pueden cerrarse espontáneamente. Esto ocurre raramente en las directas. Las principales indicaciones para el tratamiento son el deterioro visual (glaucoma, isquemia segmento anterior, etc.), diplopía, soplo subjetivo persistente, lesión corneal y dolor periocular. El tratamiento de elección actual consiste en la embolización de la fístula por vía arterial o venosa mediante balones inflables, partículas de cianocrilato o alcohol polivinílico o bien pequeños alambres de titanio, que se colocan a nivel de la comunicación arteriovenosa produciendo una trombosis que es seguida de cierre de la fístula. La evolución esperada después del procedimiento endovascular para FCC es la reducción gradual de los síntomas y signos, aunque pueden quedar algunos déficits permanentes en algunos casos.

Por otra parte, el desarrollo de la cirugía de epilepsia es una necesidad en Honduras y el manejo interdisciplinario de casos como el de la paciente que describimos aquí muestra que aunque es un desafío, debemos avanzar en colaboración para ofrecer más y mejores opciones para el control de crisis en pacientes con epilepsias de difícil control. Es necesario evaluar la factibilidad de ayudar a candidatos escogidos en los cuales no sea indispensable la evaluación prequirúrgica invasiva y en quienes no se requiera recursos tecnológicos muy sofisticados para resolver el problema. 9,10 Aunque el pronóstico de la epilepsia a largo plazo en esta paciente aún está por conocerse, la evolución hasta ahora indica un éxito terapéutico desde el punto de vista vascular y epileptológico, siendo el primer caso publicado sobre el uso de terapia endovascular para el manejo de FCC en Honduras.

### **REFERENCIAS**

- Barrow D, Spector R, Braun I. Classification and treatment of spontaneous carotid cavernous fistula. J Neurosurg 1985; 62:248-56.
- Keltner J, Satterfield D, Dublin A, Lee B. Dural and carotid cavernous fistulas. Diagnosis, management and complications. Ophthalmology 1987; 94:1585-99.
- 3. Charlin R, Pacheco P, Villarroel F, Urbina F. Fístula carótido-cavernosa: importancia de su diagnóstico y tratamiento oportunos para prevenir la ceguera. Rev Méd Chile 2004; 132:1221-1226
- Macho J, Guelbenzu S, Barrena R, Valles V, Ibarra B, Valero P. Carotid cavernous fistula: endovascular therapy. Rev Neurol 1996; 24: 59-64.
- Meyers P, Halbach V, Dowd C, Lempert T, Malek A, Phatouros C et al. Dural carotid cavernous fistula: definitive endovascular management and long term follow up. Am J Ophthalmol 2002; 134: 85-92.
- 6. Miller NR. Diagnosis and management of dural carotid-cavernous sinus fistulas. Neurosurg Focus 2007;23(5):E13.
- Das JK, Medhi J, Bhattacharya P, Borah N, Bhattacharjee K, Kuri GC, Deka H, Goswami BJ. Clinical spectrum of spontaneous carotid-cavernous fistula. Indian J Ophthalmol 2007;55(4):310-2.
- 8. Phatouros CC, Meyers PM, Dowd CF, Halbach VV, Malek AM, Higashida RT. Carotid artery cavernous fistulas. Neurosurg Clin North Am2000; 11:67-84.
- 9. Palmini A. Medical and surgical strategies for epilepsy care in developing countries. Epilepsia. 2000;41 Suppl 4:S10-7.
- Campos MG, Godoy J, Mesa MT, Torrealba G, Gejman R, Huete I. Temporal lobe epilepsy surgery with limited resources: results and economic considerations. Epilepsia. 2000;41 Suppl 4:S18-21.