

# Fístula arteriovenosa pial traumática que simula una fístula carotidocavernosa: una enfermedad infrecuente con una presentación excepcional

Jorge Arturo Santos-Franco\*, Ángel Lee, Giovanna Nava-Salgado, Marco Zenteno, Thamar Gómez-Villegas y Julio César Dávila-Romero

Servicio de Neurocirugía, Hospital de Especialidades del Centro Médico Nacional «La Raza», Instituto Mexicano del Seguro Social (IMSS), México, D.F.

## Resumen

Las fístulas arteriovenosas piales (FAVP) traumáticas son lesiones raras. Entre los datos clínicos más importantes se describen los relacionados con el efecto de volumen y la hemorragia, pero nunca se han descrito datos inherentes al flujo retrógrado hacia las venas oftálmicas, como sucede en las fístulas carotidocavernosas (FCC). Presentamos un caso de un paciente con una FAVP traumática dependiente de la arteria carótida interna (ACI) intracraneal que simuló una FCC directa y que además se asoció a una conducta agresiva. Se detalla el manejo endovascular, que incluyó el uso de stent, coils y etileno-vinil-alcohol (EVOH) asistido con balón.

**PALABRAS CLAVE:** Fístula arteriovenosa pial. Trauma craneal. Fístula carotidocavernosa. Etileno-vinil-alcohol. Terapia endovascular.

## Abstract

Traumatic intracranial pial arteriovenous fistulae are infrequent lesions. Their cardinal signs have been related to mass effect and hemorrhage, but their clinical manifestations due to venous retrograde flow into ophthalmic veins has never been described. This phenomenon is usually seen in dural arteriovenous fistula draining to the cavernous sinus or carotid-cavernous sinus fistula.

A traumatic intracranial pial arteriovenous fistula arising from the supraclinoid internal carotid artery in a young patient was revealed by aggressive behavior and ophthalmologic manifestations. The endovascular management included the use of coils, stent, and ethylene-vinyl alcohol with transient balloon occlusion of the parent vessel.

**KEY WORDS:** Arteriovenous fistula. Cranial trauma. Carotid-cavernous fistula. Ethylene-vinyl alcohol. Endovascular management.

## Introducción

Las FAVP son infrecuentes, ocupan apenas el 1.6% de todas las malformaciones vasculares cerebrales<sup>1</sup> y

se caracterizan por ser una conexión directa entre una o más arterias con una vena sin presentar un nido entre ellas<sup>2-13</sup>. Suelen ser congénitas, pero raramente son traumáticas<sup>3,12</sup>. Presentamos un caso de origen traumático cuyo cuadro clínico presentó fielmente los datos oftalmológicos de una FCC y que además presentó alteraciones de la conducta.

## Caso clínico

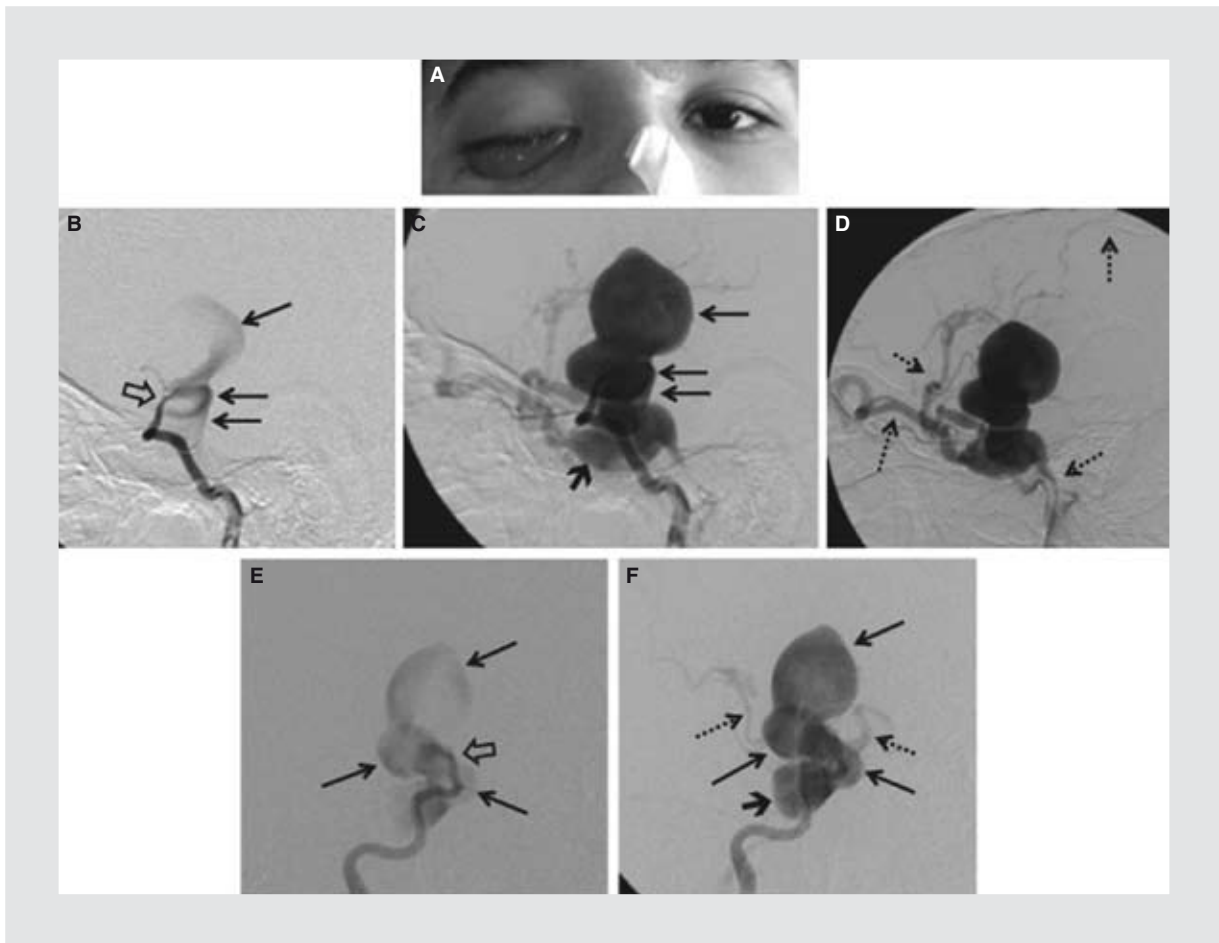
Masculino de 20 años que sufrió traumatismo craneal grave. La tomografía de cráneo mostró una contusión

### Correspondencia:

\*Jorge Arturo Santos-Franco  
Servicio de Neurocirugía  
Hospital de Especialidades del Centro Médico Nacional  
«La Raza»  
Instituto Mexicano del Seguro Social (IMSS)  
Ceris, s/n, y Zaachila  
Col. La Raza. C.P. 02990, México, D.F.  
E-mail: jorge\_santos@unam.mx  
jasantosfranco@hotmail.com

Fecha de recepción en versión modificada: 25-11-2011

Fecha de aceptación: 12-12-2011



**Figura 1. A:** fotografía de ambos ojos del paciente donde se aprecia el edema palpebral y conjuntival de ojo derecho (OD). **B-F:** angiografía selectiva de arteria carótida interna derecha (ACID) en proyecciones lateral (**B-D**) y anteroposterior (AP) (**E y F**). Se observa el sitio preciso del cortocircuito (flecha hueca en **B y E**) sin ninguna evidencia de paso arterial distal del material de contraste. Se aprecia paso hacia la várice que está compuesta por tres lóbulos (flechas delgadas en **B, C, E y F**) y de allí hacia el seno cavernoso (flecha gruesa en **C**) y ulteriormente hacia la vena oftálmica superior, el seno esfenoparietal y el seno petroso inferior (flechas punteadas). Es necesario recalcar que el flujo retrógrado incluso involucró hacia las venas corticales de la cara dorsolateral del hemisferio izquierdo hasta desaguar hacia el seno longitudinal superior (flecha punteada superior en **D**).

hemorrágica temporal derecha. Al recuperar la conciencia mostró una conducta agresiva. A los dos meses desarrolló proptosis, edema bpalpebral, edema conjuntival y congestión episcleral en ojo derecho (Fig. 1 A). Presentó parálisis del sexto nervio craneal y la presión intraocular (PIO) fue de 22 mmHg. Fue enviado a nuestro servicio bajo sospecha de una FCC. La angiografía cerebral mostró un cortocircuito entre la ACI derecha hacia alguna rama de la vena cerebral media superficial con drenaje directo al seno cavernoso con una gran várice trilobulada dirigida en sentido dorsal, de 40 x 25 x 25mm, y con flujo retrógrado hacia el seno cavernoso y el seno esfenoparietal (Figs. 1 B, C y E). El flujo retrógrado desde el seno cavernoso se dirigía hacia la vena oftálmica superior y el seno petroso inferior, y el del seno esfenoparietal, hacia las venas corticales de la cara dorsolateral del hemisferio

cerebral derecho (Figs. 1 D y F). La ACI derecha no tenía flujo hacia la arteria cerebral anterior (ACA) y la arteria cerebral media (ACM) ipsilaterales; sin embargo, estas arterias se observaron mediante el disparo angiográfico en la ACI izquierda, demostrando una adecuada colateralidad a través de la arteria comunicante anterior.

Con el paciente bajo anestesia general se cateterizó selectivamente la porción cervical de la ACI derecha con un catéter guía de 7F (Guider, Boston Scientific). Se introdujo una microguía de 300 cm (Transend, Boston Scientific) que pasó más allá de la fístula y se fijó a nivel de la arteria angular derecha, y luego de disparos angiográficos se comprobó que la ACI derecha no estaba ocluida. Por eso se decidió la reconstrucción de la arteria y la preservación del flujo mediante la colocación de un *stent* de 4.5 x 30 mm (Neuroform3,

Boston Scientific), previa colocación de un microcatéter (Echelon, eV3 Inc.) dentro de la várice a través del cortocircuito. Se embolizó con *coils* desprendibles (GDC 360°, Boston Scientific). El plan fue la embolización del lóbulo medio de la várice, el más cercano al cortocircuito, y la embolización parcial de los demás lóbulos. De esta manera conseguiríamos la disminución del flujo de la fístula y evitaríamos incrementar el efecto de masa con un cantidad excesiva de *coils*, así como, en un segundo tiempo, ser capaces de introducir EVOH, conocido comercialmente como Onyx (eV3 Inc.). Efectivamente, se logró restituir el flujo carotídeo y reducir el flujo del cortocircuito (Figs. 2 A y B). Se esperó la endotelización del *stent* por lo menos durante cuatro meses para realizar el segundo procedimiento. La evolución del paciente consistió en la mejoría oftalmológica (Fig. 2 C) y del comportamiento con desaparición de la agresividad. Se mantuvo bajo doble esquema de antiagregación oral (clopidogrel 75 mg/día y ácido acetilsalicílico 100 mg/día). En el nuevo procedimiento se cateterizó la ACI derecha con catéter guía 7F (Guided, Boston Scientific). Se cateterizó la várice a través de la malla del *stent* con un microcatéter (Echelon, eV3 Inc.) e inmediatamente se subió un balón de 4 x 7 mm (Hyperglide, eV3 Inc.), que se fijó dentro del *stent*. Se hinchó el balón hasta ocluir la circulación de la ACI. Se inició la inyección del EVOH a través del microcatéter y de manera progresiva se fue rellenando el componente venoso a partir del lóbulo medio hacia el lóbulo venoso superior y posteriormente al inferior hasta llegar al seno cavernoso y a partir de allí hacia el seno petroso inferior. La técnica de inyección en pulsos, como se describe en el manejo de otras enfermedades<sup>14-17</sup>, es intermitente, con interrupción cada 5 min con deshinchado del balón e inyección de contraste a través del catéter guía para comprobar la permeabilidad de la ACI derecha y el estado de la fístula. Los disparos angiográficos finales demostraron la oclusión de la FAVP y permeabilidad del árbol vascular (Figs. 2 D-H). El paciente despertó sin complicaciones. Al cabo de 12 meses el paciente se encontró solamente con paresia del sexto nervio craneal, PIO de 15 mmHg (Fig. 2 I) y sin trastornos conductuales.

## Discusión

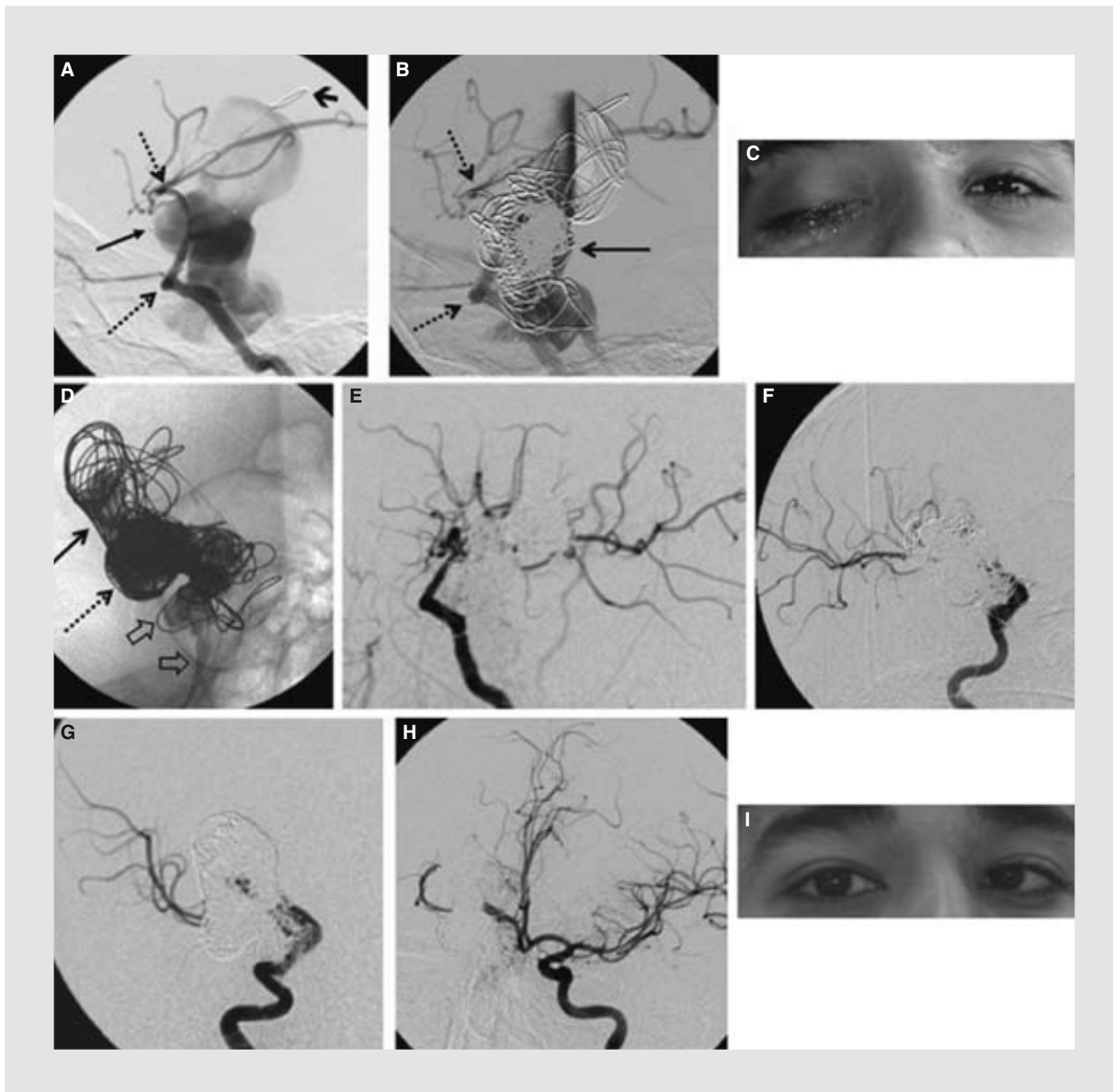
Las FCC directas son el cortocircuito entre la arteria carótida intracavernosa y el seno cavernoso, condicionado generalmente por traumatismo craneal o por causas iatrógenas<sup>14,18-20</sup>. Se denominan espontáneas

las que se originan a partir de enfermedades propias de la ACI, tales como aneurismas intracavernosos, enfermedad de Ehlers-Danlos, etc.<sup>20</sup>. Se caracterizan, entre otros datos, por presentar un cuadro oftalmológico florido condicionado por el alto flujo arterial retrógrado hacia el seno cavernoso y de allí a la vena oftálmica superior. Estos signos y síntomas incluyen edema palpebral, proptosis, edema conjuntival, congestión episcleral en sacacorchos o cabeza de medusa, hipertensión ocular y glaucoma secundario al aumento de la presión venosa episcleral, diplopía por parálisis de uno o más nervios oculomotores (generalmente el sexto nervio craneal) y trastornos de la agudeza visual por congestión venosa retiniana o hipoxia congestiva de la papila<sup>14,16,19</sup>.

El paciente que presentamos sufrió un traumatismo craneoencefálico grave que evolucionó con el cuadro clínico típico de una FCC; sin embargo, la presencia de una imagen vascular grande supraselar en la resonancia magnética llamó nuestra atención y nos hizo dudar del diagnóstico. La angiografía cerebral mostró que realmente se trataba de una FAVP. Las FAVP suelen ser de origen congénito, mientras que las adquiridas son raras, generalmente como resultado de causas traumáticas<sup>3,12</sup>. Cuando son congénitas generalmente debutan en la infancia y/o la adolescencia<sup>4,5,9,13</sup>. Tienen patrones muy variados de presentación clínica que incluyen cefalea, hemorragia, epilepsia, déficit neurológico, hipertensión endocraneal, edema cerebral y síntomas atribuibles a efecto de masa, ya que suelen presentar várices voluminosas<sup>2,8,21-23</sup>. En la revisión de la literatura no hemos encontrado casos con los síntomas oftalmológicos típicos de una FCC, como en nuestro paciente. La explicación se debe al mecanismo de flujo retrógrado que finalmente llegó hacia el seno cavernoso. Además, presentó comportamiento agresivo que erróneamente fue atribuido a la contusión temporal; sin embargo, la mejoría tras el primer procedimiento eliminó dicha probabilidad. Sospechamos de tres mecanismos posibles de la agresividad: el efecto de masa de la várice sobre la amígdala, el robo de flujo arterial en el lóbulo frontal y el efecto del flujo retrógrado sobre los lóbulos frontal y temporal.

La angiografía por sustracción digital (ASD) es el método diagnóstico de elección de las FAVP y los criterios diagnósticos consisten en un cortocircuito de flujo rápido desde una arteria gruesa hacia venas ec-tásicas y/o várices<sup>1,6</sup>.

El tratamiento de la FAVD es la interrupción del cortocircuito mediante la oclusión del componente arterial lo más cercano posible al componente venoso<sup>10</sup>, para lo cual



**Figura 2.** Tratamiento endovascular. Primer tiempo (A-C): inicialmente se desplegó un stent autoexpansible (extremos señalados con flechas punteadas en A y B), con el que se logró restituir la circulación arterial distal a la fístula. Se mantuvo una microguía de intercambio en la ACM derecha y se fijó un microcatéter a nivel del lóbulo medio de la várice (flecha en A). Se inició la embolización con coils con la finalidad de conseguir un mayor empaquetamiento del lóbulo medio (flecha en B). Aunque no se consiguió la curación de la FAVP, se logró la disminución del flujo de la fístula y la restitución del flujo arterial distal, que se tradujo en mejoría de los signos oftalmológicos (C). Segundo tiempo (D-I): se inyectó EVOH con la asistencia de un balón transitorio dentro de la ACID. Se puede observar el molde del EVOH dentro de la várice entre los coils (flecha punteada en D) y en el seno cavernoso con extensión hacia el seno petroso inferior (flechas huecas en E). La ASD de control en proyecciones lateral (E), oblicua derecha (F) y AP (G) muestra ausencia del cortocircuito y persistencia del flujo arterial en la ACM derecha. La ASD selectiva de ACI izquierda (H) mostró la presencia de la ACA izquierda y adecuada colateralidad hacia el eje carotídeo derecho. Al mes los síntomas oftalmológicos revirtieron y solamente persistió paresia del sexto nervio craneal derecho.

es fundamental un análisis prolijo de la angiografía<sup>12,13,24-27</sup>. El manejo endovascular puede proponerse como primera elección, sobre todo en las FAVP profundas<sup>2,8</sup>. Una opción en nuestro paciente era la oclusión definitiva de la ACI, considerando la adecuada colateralidad con el eje carotídeo contralateral. Sin embargo, nuestra ten-

dencia es siempre la preservación del flujo sanguíneo. En la literatura se ha descrito el uso de diversos materiales<sup>10</sup>, pero en la actualidad se utilizan los coils desprendibles, el n-butil cianoacrilato<sup>2,7,10,12,28</sup> y muy recientemente el EVOH, que ha sido descrito en el manejo de solamente dos casos de FAVP congénitas<sup>2</sup>.

En nuestro paciente el manejo fue complejo, se utilizó un *stent* para reconstruir la ACI, *coils* para disminuir el flujo del cortocircuito y EVOH. Cuando los materiales líquidos como el EVOH o el n-butil cianoacrilato migran más allá hacia el drenaje venoso resultan en trombosis venosa con infarto cerebral venoso, embolia pulmonar o hemorragia cerebral<sup>2,11,21,22</sup>. Además, utilizamos un balón no desprendible para promover la oclusión transitoria de la ACI derecha mientras se inyectaba el EVOH, evitando el reflujo del material hacia la luz arterial, situación que hubiese resultado en infarto cerebral.

En resumen, el caso descrito es interesante por ser una FAVP traumática y por su clínica, que simuló una FCC, además de trastornos conductuales. Además, su manejo complejo incluyó el uso de *stent*, *coils* e inyección de EVOH asistida con balón, con lo que se logró la curación de la fístula y la preservación de la ACI.

## Bibliografía

- Lasjaunias P, Manelfe C, Chiu M. Angiographic architecture of intracranial vascular malformations and fistulas--pretherapeutic aspects. *Neurosurg Rev.* 1986;9:253-63.
- Newman BC, Hu YC, McDougall CG, Albuquerque FC. Ballon-assisted Onyx embolization of cerebral single-channel pial arteriovenous fistulas. *J Neurosurg Pediatrics.* 2011;7:637-42.
- Lee JY, Son YJ, Kim JE. Intracranial Pial Arteriovenous Fistulas. *J Korean Neurosurg Soc.* 2008;44:101-4.
- Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Hardin CW, Dowd CF, Barnwell SL. Transarterial occlusion of solitary intracerebral arteriovenous fistulas. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1989;10:747-52.
- Oyesiku NM, Gahm NH, Goldman RL. Cerebral arteriovenous fistula in the Klippel-Trenaunay-Weber syndrome. *Dev Med Child Neurol.* 1988;30:245-8.
- Tomlinson FH, Rüfenach DA, Sundt TM Jr, Nichols DA, Fode NC. Arteriovenous fistulas of the brain and the spinal cord. *J Neurosurg.* 1993;79:16-27.
- Nakiri GS, Abud TG, Oliveira RS, Santos AC, Machado HR, Abud DG. Endovascular treatment of intracranial pial arteriovenous fistula. *Arq Neuropsiquiatr.* 2010;68:463-5.
- Masuoka J, Sakata S, Maeda K, Matsushima T. Intracranial pial single-channel arteriovenous fistula presenting with significant brain edema. *J Neurosurg.* 2008;109:497-501.
- García-Mónaco R, Taylor W, Rodesch G, et al. Pial arteriovenous fistula in children as presenting manifestation of Rendu-Osler-Weber disease. *Neuroradiology.* 1995;37:60-4.
- Wang YC, Wong HF, Yeh YS. Intracranial pial arteriovenous fistulas with single-vein drainage. *J Neurosurg (Pediatrics 2).* 2004;100:201-5.
- Giller CA, Batjer HH, Purdy P, Walker B, Mathews D. Interdisciplinary evaluation of cerebral hemodynamics in the treatment of arteriovenous fistulae associated with giant varices. *Neurosurgery.* 1994;35:778-84.
- Hoh BL, Putman CM, Budzik RF, Ogilvy CS. Surgical and endovascular flow disconnection of intracranial pial single-channel arteriovenous fistulae. *Neurosurgery.* 2001;49:1351-63.
- Oda M, Takahashi JA, Hashimoto N, Oyama T. Rendu-Osler-Weber disease with a giant intracerebral varix secondary to a high-flow pial AVF. *Surg Neurol.* 2004;61:353-6.
- Zenteno M, Santos-Franco J, Rodríguez-Parra V, et al. Management of direct carotid-cavernous sinus fistulas with the use of ethylene-vinyl alcohol (Onyx) only: preliminary results. *J Neurosurg.* 2010;112:595-602.
- Cognard C, Januel AC, Silva NA Jr, Tall P. Endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas with cortical venous drainage: new management using Onyx. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2008;29:235-41.
- Klisch J, Huppertz HJ, Spetzger U, Hetzel A, Seeger W, Schumacher M. Transvenous treatment of carotid cavernous and dural arteriovenous fistulae: results for 31 patients and review of the literature. *Neurosurgery.* 2003;53:836-57.
- Weber W, Siekmann R, Kis B, Kuhene D. Treatment and follow-up of 22 unruptured wide-neck intracranial aneurysms of the internal carotid artery with Onyx HD 500. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2005;26:1909-15.
- Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tindall GT. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous fistulas. *J Neurosurg.* 1985;62:248-56.
- Kellogg JX, Kuether TA, Horgan MA, Nesbit GM, Barnwell SL. Current concepts on carotid artery-cavernous sinus fistulas. *Neurosurg Focus.* 1998;5(4):E12.
- Lasjaunias P, Berenstein A. Arteriovenous fistulas. En: Lasjaunias P, Berenstein A, eds. *Surgical Neuroangiography: Endovascular Treatment of Craniofacial Lesions.* Berlín: Springer-Verlag; 1987. Vol. 2. p. 175-233.
- Viñuela F, Drake CG, Fox AJ, Pelz DM. Giant intracranial varices secondary to high-flow arteriovenous fistulae. *J Neurosurg.* 1987;66:198-203.
- Nelson K NY, Lasjaunias P, Berenstein A. Endovascular embolization of congenital intracranial pial arteriovenous fistulas. *Neuroimaging Clin N Am.* 1992;2:309-17.
- Aoki N, Sakai T, Oikawa A. Intracranial arteriovenous fistula manifesting as progressive neurological deterioration in an infant: case report. *Neurosurgery.* 1991;28:619-22.
- Pillai A, Rajeev K, Unnikrishnan M. Surgical management of a pial arteriovenous fistula with giant varix in an infant. *Neurol India.* 2006;45:434-6.
- Weoun YC, Yoshida Y, Sachet M, et al. Supratentorial cerebral arteriovenous fistulas (AVFs) in children: review of 41 cases with 63 non choroidal single-hole AVFs. *Acta neurochir (Wien).* 2005;147:17-31.
- Youn SW, Han MH, Kwon BJ, Kang HS, Chang HW, Kim BS. Coil-based endovascular treatment of single-hole cerebral arteriovenous fistulae: experiences in 11 patients. *World Neurosurg.* 2010;73:2-10.
- Tabatabai SA, Zadeh MZ, Habibi Z, Meybodi AT, Hashemi M. Intracerebral atypical calcification in nongalenic pial arteriovenous fistula: a case report. *Cases J.* 2008;19;1(1):335.
- Hermier M, Turjman F, Bozio A, Duquesnel J, Lapras C. Endovascular treatment of an infantile nongalenic cerebral arteriovenous fistula with cyanoacrylate. *Childs Nerv Syst.* 1995;11:494-8.