

## PRESENTACIÓN DE CASO

### *Fístula carótido-cavernosa postraumática. Presentación de un caso* *Post-traumatic carotid-cavernous fistulae. Case report*

Margarita Elena Sánchez Padín<sup>I</sup>, José Antonio Jordán González<sup>II</sup>, Isis Montesinos Álvarez<sup>III</sup>, Javier Figueredo Méndez<sup>IV</sup>.

I Especialista de I Grado en Neurocirugía. Instructor. Hospital Universitario “General Calixto García”. La Habana, Cuba.

II Especialista de I y II Grado en Imagenología. Doctor en Ciencias Médicas. Profesor Auxiliar. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas. La Habana, Cuba.

III Especialista de I Grado en Oftalmología. Profesora Auxiliar. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas, La Habana, Cuba.

IV Especialista de I y II Grado en Neurocirugía. Doctor en Ciencias Médicas. Profesor Titular. Investigador Titular. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas. La Habana, Cuba.

## RESUMEN

Se presentó un caso portador de una fístula carótido-cavernosa postraumática. Hombre de treinta y ocho años sufrió fractura de base de cráneo secundaria a un accidente automovilístico con persistencia de cefalea y enrojecimiento del ojo izquierdo, cuadro que empeoró en pocos días hasta hacerse específico de la entidad y bilateral, dado por inyección conjuntival, proptosis, quémosis, diplopia, parálisis de la motilidad ocular y acúfenos continuos. Se diagnosticó clínicamente una fístula carótido-cavernosa lo que se corroboró mediante angiografía cerebral. El paciente tuvo una evolución progresiva hacia la pérdida de la visión y el aumento de los síntomas congestivos orbitarios. Se trató mediante oclusión endovascular con espirales desprendibles de platino, posterior a lo cual evolucionó satisfactoriamente.

**Palabras clave:** trauma craneal, fístula carótido-cavernosa, tratamiento endovascular.

## **. ABSTRACT**

A case of traumatic carotid-cavernous fistula is presented. A 38 year old male suffered a skull base fracture after a car accident indicating persistent headache and left eye flushing, which aggravated in a few days to get specific to the entity and bilateral, given by conjunctival injection, proptosis, chemosis, diplopia, paralysis of ocular motility and continuous tinnitus. A carotid-cavernous fistula was clinically diagnosed and confirmed by cerebral angiography. The patient had rapidly progressive evolution to vision loss and increase of orbital congestive symptoms. He was treated by endovascular occlusion with detachable platinum *coils*, after which evolved satisfactorily. **Key words:** craneal trauma, carotid-cavernous fistulae, endovascular treatment.

## **INTRODUCCIÓN**

Se denomina fístula carótido-cavernosa (FCC) a cualquier comunicación anómala que se establezca entre la arteria carótida y el seno cavernoso (SC) generando una derivación arteriovenosa patológica, capaz de manifestarse en forma anterógrada a la órbita, produciendo un compromiso ocular severo<sup>(1)</sup>.

Las FCC pueden clasificarse atendiendo a tres criterios básicos: según la patogenia pueden ser traumáticas o espontáneas, según la anatomía vascular pueden ser directas o indirectas y según la hemodinamia pueden ser fístulas de alto o bajo flujo. Barrow y colaboradores, en 1985 plantearon un cuarto criterio de clasificación sobre la base de los vasos implicados en la anatomía vascular observada en la angiografía<sup>(2)</sup>:

**Tipo A** – comunicación directa entre la carótida interna con el seno cavernoso. No hay fístulas durales.

**Tipo B** – comunicación entre ramas meníngeas de la arteria carótida interna con el seno cavernoso.

**Tipo C** – comunicación entre ramas menígeas de la arteria carótida externa con el seno cavernoso.

**Tipo D** – comunicación entre ramas menígeas de las arterias carótidas interna y externa con el seno cavernoso, las más comunes.

Las fístulas directas son por definición lesiones de alto flujo y representan una conexión directa de la arteria carótida interna (ACI) dentro del SC, es decir tipo A; tienen una incidencia de 1-10.000 admisiones hospitalarias y predominan en varones en edad laboral. Son traumáticas en más del 80% de los casos, espontáneas como resultado de ruptura de un aneurisma intracavernoso o una arteria aterosclerótica e iatrogénicas por trauma quirúrgico directo. Estas se caracterizan por un debut clínico súbito, dramático y rápidamente progresivo. Las traumáticas, son responsables de no menos de 500 000 casos anuales de ceguera traumática unilateral<sup>(1,3-5)</sup>.

La variante indirecta es de bajo flujo y se produce por ruptura de ramas durales de pequeño calibre de la arteria carótida externa (ACE) y en algunas ocasiones de la ACI en el interior del SC. Son generalmente espontáneas y la causa exacta de esta variante es desconocida, sin embargo, se han observado algunas situaciones que han generado cierta predisposición, tales como sexo femenino, embarazo, climaterio, trombosis del seno cavernoso y enfermedades del colágeno. Tienen un debut clínico insidioso y lentamente progresivo<sup>(6)</sup>.

Desde el punto de vista fisiopatológico, la nueva conexión fistulosa genera, además de los síntomas compresivos típicos de una masa intraorbitaria, un aumento del flujo y de la presión intracavernosa y un flujo retrógrado a través de las venas oftálmicas superior e inferior que drenan en el SC. La sangre contenida en las venas afectadas se arterioliza y la presión intravenosa se eleva, de forma que pueden alterarse la velocidad y la dirección de la circulación venosa. Este flujo inverso induce hipertensión venosa orbitaria que ocasionalmente es bilateral a causa de la comunicación con el SC contralateral a través del seno coronario. La gravedad depende de la cantidad de flujo y de la capacidad de drenaje venoso<sup>(3)</sup>.

El trauma craneoencefálico (TCE) representa la causa más frecuente de fístulas directas, entre el 80% y 90% de las mismas. Entre los eventos de mayor incidencia se han visto accidentes vehiculares, laborales-industriales y caídas de altura que cursan con trauma cerrado y fractura de base de cráneo, así como lesiones

penetrantes a la órbita. Dentro de las iatrogénicas se reportan en el curso de los abordajes hipofisarios trans-esfenoidales, durante angioplastias carótidas, abordajes al seno etmoidal, osteotomías tipo *Le Fort*, tromboendarterectomía, rizotomía percutánea y biopsias nasofaríngeas<sup>(1,6,7)</sup>.

El manejo adecuado de estas lesiones implica la oclusión de la fístula o del vaso tributario por encima y por debajo del nivel fistuloso, ya sea mediante tratamiento quirúrgico o endovascular, el objetivo de ambos es la eliminación de la fístula con preservación de la circulación colindante. El tratamiento endovascular incluye la colocación de *stents* protegidos, balones, espirales u otros agentes esclerosantes<sup>(1,6,8-12)</sup>.

Hasta hace poco el tratamiento de elección era la embolización selectiva con balones desprendibles de silicona con preservación de la ACI en su porción intracavernosa. Este proceder presentó el inconveniente de alto porcentaje de recidivas (13%), debido a migraciones o a un desinflado prematuro del balón. Es por ello que se han realizado nuevas experiencias con otros materiales embolígenos, tales como las espirales de platino desprendibles (*coils*), que originalmente fueron diseñadas para el tratamiento de aneurismas intracraneales<sup>(6,13-18)</sup>.

El uso de *coils* se introdujo en 1975. Su mecanismo de acción se basa en la producción de turbulencias y el descenso del flujo sanguíneo, lo cual incrementa la incidencia de formación de trombos en la fístula<sup>(8)</sup>. Sus ventajas son múltiples: facilidad de aplicación, alta trombogenicidad y bajo índice de recidiva. Sin embargo, tanto los *coils* de acero como los de platino, tienen el inconveniente de ocasionar artefactos significativos en las imágenes de tomografía axial computarizada (TAC), así como en las de resonancia magnética (RM) los *coils* de acero, no así los de platino, permitiendo mediante esta realizar un seguimiento imagenológico posoperatorio no cruento<sup>(13,19)</sup>.

La mayoría de las FCC directas pueden ocluirse mediante tratamiento endovascular por vía arterial, que permite tanto la embolización anterógrada como retrógrada de la fístula. Los abordajes transvenosos se utilizan fundamentalmente para el manejo de las FCC indirectas, pero en algunos casos de fístulas directas donde existe oclusión proximal de la arteria o disección de la arteria carótida, se describe el uso de la vía venosa para su oclusión<sup>(20,21)</sup>.

## CASO CLÍNICO

Se presenta un paciente masculino diestro de treinta y ocho años que ingresó en el Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas (CIMEQ) por cefalea y proptosis bilateral. En el curso de un accidente automovilístico sufrió un TCE con pérdida transitoria de conciencia, rinorragia, otorragia bilateral y cefalea bifrontal. Fue ingresado en el hospital provincial de Sancti Spíritus donde le diagnosticaron fractura de base de cráneo, fosa media izquierda. Durante su ingreso persistió la cefalea y los acúfenos y notó enrojecimiento del ojo izquierdo, pero se le trató como conjuntivitis y fue dado de alta. Tras un cuadro de vómitos empeoró la inyección conjuntival, se hizo bilateral y aparecieron proptosis, quémosis, diplopia, parálisis de la motilidad ocular y acúfenos continuos. Reingresó y le diagnosticaron clínicamente una FCC. Fue remitido al hospital CIMEQ para realizar estudio vascular específico, precisar el diagnóstico y recibir tratamiento apropiado.

APP: Hipertensión arterial de diez años de evolución, controlada con enalapril (20 mg) 1 tableta diaria. Fiebre reumática, tratada con penicilina benzatínica hasta la adolescencia.

Datos de interés al examen físico

Al ingreso (Figura. 1):

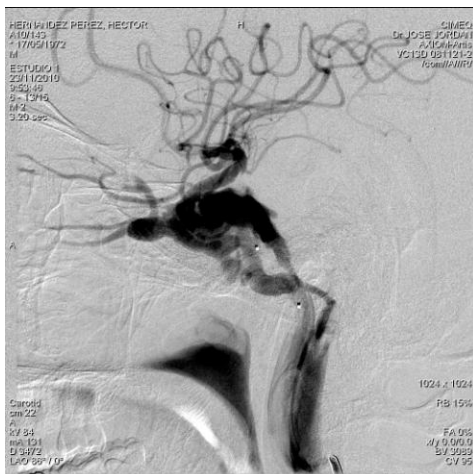
- Proptosis bilateral que no impide la oclusión palpebral
- Gran quémosis bilateral
- Parálisis de toda la musculatura extrínseca de ambos ojos
- Edema palpebral ligero
- No dolor a la palpación
- Thrill y soplo bitemporal ligero sincrónico con el pulso
- Reflejos fotomotor y consensual bilateral conservados
- Tensión ocular normal
- Fondo de ojo (FO) normal
- Agudeza visual excelente: la unidad en ambos ojos (AO)



**Figura. 1.** Aspecto del paciente al ingreso.

#### Estudios imagenológicos diagnósticos

- Angio TAC cerebral: llene y dilatación del seno cavernoso por fístula que impresiona carótido-cavernosa derecha. Se recomienda realizar angiografía cerebral.
- Angiografía cerebral: se observa buen flujo a través de la ACI derecha. Llene de FCC a través de la ACI izquierda. Con el test de oclusión se comprime la ACI izquierda y se inyecta por la derecha, no observándose llene de la fístula. ID: FCC con llene izquierdo, (Figura. 2).



**Figura. 2.** Vista lateral de la angiografía cerebral. Se observa el llene del SC a través de la ACI izquierda. Define al paciente como portador de una FCC de alto flujo. Tomado de la base de datos de angiografías cerebrales del departamento de Radiología intervencionista del CIMEQ.

## Tratamiento y evolución

Tratamiento sintomático: se realizó, previo al proceder terapéutico definitivo y estuvo en manos de los oftalmólogos. En sentido general se trató de minimizar las complicaciones de la proptosis y la quémosis, así como del aumento de la tensión ocular. Se utilizaron varios ungüentos y colirios antimicrobianos y antiinflamatorios para tratar la queratitis secundaria y humedecer la conjuntiva expuesta. Además se utilizó tratamiento analgésico para la cefalea e hipotensor ocular local y sistémico.

A pesar del tratamiento conservador los síntomas deficitarios visuales progresaron en pocos días y se aceleraron después de realizar la angiografía cerebral diagnóstica. Los cambios en el examen físico oftalmológico se tornaron alarmantes, como se muestra a continuación y la cefalea se hizo más intensa y continua.

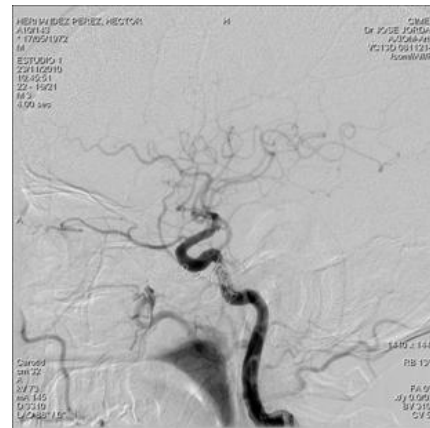
### Evolutivamente

- Queratitis inferior en AO
- Aumento de la tensión ocular
- Agudeza visual disminuida en AO: OD – 0.5 y OI – 0.4
- FO: borramiento papilar y hemorragias en el polo posterior en AO

### 48 horas después

- Persiste la queratitis inferior en AO
- Mayor aumento de la tensión ocular del OD
- Agudeza visual en rango de baja visión: OD – cuenta dedos y OI – 0.1
- FO: Borramiento total de la papila, exudados y hemorragias en el polo posterior de AO, tortuosidad arterial.

Tratamiento definitivo: el proceder terapéutico consistió en una técnica endovascular de obliteración del SC a través de la ACI izquierda con tres espirales de platino desprendibles de distintas dimensiones y volúmenes helicoidales. Se logró la obliteración total de la FCC ya que su única arteria tributaria era la propia ACI (Figura.3). Durante el proceder ocurrió un vasoespasmo a nivel de la bifurcación carotídea izquierda sin expresión clínica que se revirtió con la instilación intra-arterial de nimodipino. El paciente fue llevado a una sala de cuidados intermedios tras el proceder terapéutico, evolucionó satisfactoriamente y cuarenta y ocho horas después fue trasladado a la sala abierta de neurocirugía donde estaba ingresado.



**Figura 3.** Obliteración endovascular de la FCC. A la izquierda durante el proceder y a la derecha una vez concluido con el cierre total de fístula. Tomado de la base de datos de angiografías cerebrales del departamento de Radiología intervencionista del CIMEQ.

El paciente mejoró en las primeras veinticuatro horas, sin complicaciones, con reversión progresiva de todos los síntomas y fue dado de alta trece días después de realizado el tratamiento definitivo. Tuvo su primera consulta de seguimiento un mes después y su examen físico oftalmológico era normal, excepto por ligera paresia del músculo recto externo derecho, que cuatro meses después del proceder ya había desaparecido, (Figura. 4).



**Figura. 4:** Aspecto del paciente cuatro meses después del proceder terapéutico definitivo.

A pesar que, la FCC postraumática es una entidad poco frecuente, existen muy pocos centros hospitalarios en el país, que cuenten con los recursos materiales



necesarios y el personal médico entrenado para dar solución definitiva y menos agresiva para el paciente.

El diagnóstico de la FCC es clínico por excelencia y es evidente en las lesiones de alto flujo. Los síntomas y signos son fundamentalmente oculares debido a la grave congestión venosa orbitaria cuya fisiopatología ya ha sido explicada. El cuadro clínico se caracteriza por<sup>(1,4,7)</sup>:

- Dolor orbitario o cefalea y edema palpebral
- Grados variables de exoftalmos con o sin soplo (85%)
- Acúfenos (82%)
- Diplopia (70%)
- Oftalmoparesia, la más frecuente es la del VI par (51%)
- Biomicroscopía: se observa quémosis conjuntival, tortuosidad vascular conjuntival y episcleral "cabeza de medusa" (86%)
- Hipertensión ocular (38%)
- Oftalmoscopia: se puede observar edema del disco óptico, ingurgitación venosa, hemorragias retinianas, oclusiones venosas (retinopatía por éstasis venoso) y desprendimiento coroideo.
- El soplo fronto-orbitario (tinnitus) sincrónico con el pulso al inclinarse es un dato patognomónico. Este desaparece o disminuye con la compresión de la arteria carótida e incluso en ocasiones ocurre reversión de la proptosis (signo de Branham)<sup>(1,4)</sup>.
- El diagnóstico diferencial es amplio y variado y debe realizarse con cualquier proceso capaz de provocar desplazamiento y congestión del globo ocular, como son los tumores benignos o malignos, las metástasis, la oftalmopatía tiroidea, los procesos inflamatorios e infecciosos, las hemorragias retrobulbares secundarias a traumatismos u otras causas, las vasculitis orbitarias, entre otras.
- El diagnóstico se confirma mediante la angiografía cerebral selectiva de la ACI y ACE de ambos lados que demuestra la comunicación anómala y permite caracterizar la FCC desde el punto de vista de su hemodinamia y angioarquitectura, así como realizar el tratamiento definitivo en el propio proceder endovascular<sup>(4,20)</sup>.

- En este caso se diagnosticó una FCC izquierda tipo A, que por ser de alto flujo, no cierra espontáneamente y se le realizó el proceder de elección para estos casos, que es la obliteración endovascular con *coils* de platino, el cual reporta una tasa de éxito entre el 58% y el 100% según distintas series internacionales. Las indicaciones para realizar este proceder son<sup>(1,4,6,7)</sup>:
- Diplopía
- Glaucoma
- Dolor intratable
- Proptosis marcada
- Retinopatía venosa obstructiva que amenaza la visión
- Debe realizarse de manera urgente ante las siguientes situaciones:
- Déficits neurológicos agudos
- Hipertensión intracraneal
- Pérdida de visión

Un hecho curioso en este caso radica en que siendo la fístula izquierda, no sólo fue el ojo derecho el más afectado, sino que tardó más tiempo en recuperarse aún cuando se esperaba todo lo contrario. No se tuvo una explicación para esto, aunque hipotéticamente podría decirse que un drenaje venoso orbitario derecho constitucional previamente comprometido, en comparación a su homólogo contralateral, pudiera ser más susceptible a la repercusión de un flujo retrógrado arterializado.

El retraso en el diagnóstico de una FCC de alto flujo puede llevar a un compromiso hemodinámico cerebral importante que conllevaría a un cuadro de déficit neurológico o de hipertensión endocraneana y aún más frecuente, la hipertensión venosa orbitaria que conlleva a un compromiso ocular severo que, de no tratarse rápidamente, daría al traste con la visión del paciente de forma irreversible y ocasionalmente bilateral.

Cuando esta entidad es tratada adecuadamente y antes que los cambios fisiopatológicos que se producen en la órbita conlleven alteraciones secundarias irreversibles, la evolución del paciente es satisfactoria con remisión total de los síntomas.

## CONCLUSIONES

Pacientes como estos deben ser evaluados por un equipo multidisciplinario, integrado por los servicios de neurocirugía, oftalmología y neurorradiología intervencionista.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Lanzino G, Meyer FB. Carotid-cavernous fistulas. En: Winn HR, editor. Youmans neurological surgery. 6<sup>ta</sup> Ed. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2011. p. 4101-6
2. Barrow DL, Spector RH, Braun IF. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. J Neurosurg. 1985;62:248-56.
3. Linskey ME, Sekar LN, Hirsch WL Jr, Yonas H, Horton JA. Aneurysms of the intracavernous carotid artery: Clinical presentation, radiographic features and pathogenesis. Neurosurg. 1990;26:71-9.
4. Greenberg MS. Handbook of neurosurgery. 6<sup>ta</sup> Ed. New York: Thieme; 2006. p. 245-8.
5. Lima V. Trauma ocular. Distribución de acuerdo con la clasificación estandarizada. Trauma. 2008;15(1):5-10.
6. Torres CR. Tratamiento endovascular de fístulas carotídeo-cavernosas traumáticas. Experiencia preliminar en Costa Rica. Neuroeje. 2009;19(1):17-23.
7. Alza GA, Romero MJ, Beltrame M. Fístula carotídeo-cavernosa. Rev del Hosp Privado de Comunidad. 2004;7(1):32-9 (Consultado en Septiembre de 2014). Disponible en: <http://www.hpc.org.ar/images/revista/337-v7n1p20.pdf>
8. Wyers MC, Powell RJ. Management of carotid injuries in a hostile neck using endovascular grafts. J Vasc Surg. 2012;109:1335-9.
9. Cho KC, Seo DH, Choe IS, Park SC. Cerebral hemorrhage after endovascular treatment of bilateral traumatic carotid cavernous fistulae with covered stents. J Korean Neurosurg Soc. 2011;50(2):126-9.
10. Tiewei Q, Ali A, Shaolei G, Feng L, Zhongsong S, Xuesong L, et al. Review carotid cavernous fistulas treated by endovascular covered stent grafts with follow-up results. Br J Neurosurg. 2010;24(4):435-40.
11. Lacerda AJ, Martín JC, Martín D, Tacas N, Romeo S. Tratamiento quirúrgico para la fístula carótido-cavernosa traumática. Presentación de un caso. Rev

- Cub Neurol Neurocir. 2014; 4(2):174-8 (Consultado en Septiembre de 2014). Disponible en: <http://www.revneuro.sld.cu/index.php/neu/article/183.pdf>
12. Mizunari T, Murai Y, Kim K, Kobayashi S, Kamiyama H, Teramoto A. Posttraumatic carotid-cavernous fistulae treated by internal carotid artery trapping and high-flow bypass using a radial artery graft-two case reports. *Neurol Med Chir Tokyo*. 2011;51(2):113-6.
  13. Sánchez R, Marin B. Fístula arteriovenosa postraumática. Tratamiento endovascular. Revisión de la literatura y presentación de un caso clínico. *Rev Esp Cirug Oral Maxilofac*. 2010;32(2):45-51.
  14. Ahn JY, Chung YS, Lee BH, Choi SW, Kim OJ. Stent-graft placement in a traumatic internal carotid-internal jugular fistula and pseudoaneurysm. *J Clin Neurosci*. 2011;21:636-9.
  15. Liliang PC, Hsu SW, Kuo YL, Lee TC. Trauma induced ascending pharyngeal artery-internal jugular vein fistula. Case report. *Surg Neurol*. 2010;81:89-91.
  16. Luo CB, Teng MM, Yen DH, Chang FC, Lirng JF, Chang CY. Endovascular embolization of recurrent traumatic carotid-cavernous fistulas managed previously with detachable balloons. *J Trauma*. 2004;56:1214-20.
  17. Chiriac A, Iliescu BF, Dobrin N, Poata I. One-step endovascular treatment of bilateral traumatic carotid-cavernous fistula with atypical clinical course. *Turk Neurosurg*. 2014;24(3):422-6.
  18. Zhang Z, Wang C, Yang K, Tang J, Zhang C, Xie X, et al. Endovascular embolization of refractory traumatic carotid cavernous fistula with micro-coils. A preliminary experience. *Turk Neurosurg*. 2014;24(2):190-5.
  19. Tjounakaris SI, Jabbour PM, Rosenwasser RH. Neuroendovascular management of carotid cavernous fistulae. *Neurosurg Clin N Am*. 2009;20(4):447-52.
  20. Malan J, Lefeuvre D, Mngomezulu V, Taylor A. Angioarchitecture and treatment modalities in posttraumatic carotid cavernous fistulae. *Interv Neuroradiol*. 2012;18(2):178-86.

21. Annesley-Williams DJ, Goddard AJ, Brennan RP, Gholkar A. Endovascular approach to treatment of indirect carotico-cavernous fistula. Br J Neurosurg. 2011;95:228-33.

Recibido: 4 de octubre 2015

Aceptado: 22 de diciembre de 2015

Dra. Margarita Elena Sánchez Padín. Hospital Docente "General Calixto García". La Habana Cuba.

Correo electrónico: [elenapadin@infomed.sld.cu](mailto:elenapadin@infomed.sld.cu)