

Aneurismas intracraneanos en la infancia

Víctor Hugo Escobar-de la Garma¹, Alberto de Montesinos-Sampedro², Felipe Padilla-Vázquez¹, Ricardo Ramírez-Aguilar¹, Rafael Mendizábal-Guerra³

RESUMEN

La prevalencia de aneurismas intracraneales en población pediátrica corresponde del 1 al 2% de todos los casos de aneurismas en la actualidad, suelen ser más afectados pacientes varones y la localización más frecuente es la bifurcación de la arteria carótida interna. Se han descrito tratamientos quirúrgicos y endovasculares para tratar estas afecciones. Presentamos la experiencia de un caso en este Instituto y revisión de la literatura. Paciente masculino de 11 años con historia de adecuado desarrollo psicomotor, sin antecedentes de importancia, que inició con cuadro cefalálgico de manera súbita, severa y expansiva, acompañándose de náusea y vómito, dos horas después de iniciado el cuadro, se asociaron crisis convulsivas tónico clónicas generalizadas, además de letargia y desorientación, razón por la cual fue internado durante dos semanas en hospital regional recibió manejo médico y trasladado a este Instituto donde encontramos Glasgow de 15, con intervalos de desorientación alternando con integridad neurológica encontrándose sólo hemiparesia derecha 4/5. Se valoró tomografía computada inicial con disminución en la amplitud de giros y surcos del lado izquierdo, hiperdensidad en las cisternas de la base predominando del lado izquierdo, además de la fisura silviana del mismo lado con imagen redondeada hiperdensa localizada en el sitio de la bifurcación de la arteria carótida interna izquierda, sugestiva de hemorragia subaracnoidea *Fisher II* secundaria a ruptura aneurismática. Se realizó angiorresonancia magnética confirmando presencia de un aneurisma sacular pequeño de 4 x 2 mm con cuello estrecho (2 mm). Se intervino quirúrgicamente después de dos semanas de *ictus* mediante abordaje pterional y *clipaje* de aneurisma. El paciente mostró mejoría en síntomas motores subsecuentemente. Se realizó angiografía cerebral después de seis meses de la cirugía corroborando ausencia de lesiones vasculares. *Conclusión:* el *clipaje* de aneurismas intracraneanos en la actualidad en población pediátrica es un procedimiento seguro y feasible con resultados benéficos a largo plazo. Debido a la escasa cantidad de pacientes con esta rara afección no hay ensayos clínicos controlados comparando intervención quirúrgica con procedimientos endovasculares; sin embargo, ambos tratamientos parecen tener resultados similares en esta población, aunque la microcirugía se ha descrito como una forma de tratamiento segura, eficaz y durable.

Palabras clave: aneurismas infantiles, aneurisma intracraneal, carótida interna, *clipaje* de aneurismas.

Intracranial aneurysms in children counts

ABSTRACT

The prevalence of intracranial aneurysms in children counts for 1-2% of all cases. There is male predominance and the most common location is bifurcation of internal carotid artery. Microsurgical and endovascular treatment have been described with good results in both cases. We present the experience in one case and literature review. *Case report:* we present the case of an 11-year male with normal psychomotor development, and apparently healthy parents. He had history of sudden headache associated with nausea and vomiting two weeks before he was treated in our institution. This clinical picture was accompanied by an episode of generalized seizures and posterior drowsiness. He received medical treatment in regional hospital and posteriorly moved to our hospital where we evaluated him

finding Glasgow Coma Scale 15, Hunt and Hess 1 and mild right hemiparesia. Initial CT scan done two weeks earlier revealed a Fisher III subarachnoid hemorrhage with predominance of blood in left basal cisterns. MRI with vascular reconstruction performed in our hospital showed saccular small aneurysm (4 x 2 mm) with narrow neck of 2mm located in the bifurcation of left internal carotid artery. Microsurgical clipping was done through a pterional approach succesfully. He showed recovery of motor symptoms. Six months later cerebral angiogram showed no evidence of residual aneurysm. *Conclusion:* Intracranial Aneurysm clipping in childhood is a safe and feasible procedure with good long term results. Due to the lack of enough sample size, clinical trials are needed to clarify the benefits of endovascular versus microsurgical treatment, however, both of them seem to have similar results in this population, although microsurgical procedures are claimed to be a safer, definite and more durable form of treatment.

Key words: childhood aneurysms, intracranial aneurysm, internal carotid artery, microsurgical aneurysm clipping.

Los aneurismas intracraneos en la edad infantil son un hallazgo raro, encontrándose aproximadamente en 0.19 a 4.6% de todos los casos de aneurismas intracraneales, con predominio en circulación anterior^{1,2}. Existen características en esta población que difieren de forma marcada con los encontrados en la vida adulta, desde su demografía, presentación clínica inicial, localización, pronóstico y mecanismos fisiopatológicos³. A pesar de ello, las estrategias de tratamiento son las mismas que en pacientes adultos, siendo el *clipaje* microquirúrgico y los procedimientos endovasculares similares en resultados a largo lazo.

Presentación del caso

Reportamos el caso de un adolescente masculino de 11 años con historia de adecuado desarrollo psicomotor, sin comorbilidades o antecedentes personales de importancia. Los padres no reportaron historia de enfermedad alguna. Su cuadro clínico inició con cefalea de aparición súbita, severa, espontánea y expansiva, que se asoció a eventos de actividad física importantes; ésta se acompañó de náusea y vómito en múltiples ocasiones y dos horas después de iniciado el cuadro, se asociaron crisis convulsivas tónico-clónicas generalizadas, además de letargia y desorientación, razón por la cual fue internado durante dos semanas en hospital regional de segundo nivel recibiendo manejo médico contra vasoespasmo y edema cerebral, además de tratamiento antimicrobiano.

Fue trasladado a este Instituto una semana después encontramos en la valoración inicial escala de coma de Glasgow de 14 puntos, asociándose intervalos de desorientación alternando con integridad neurológica.

Recibido: 3 junio 2013. Aceptado: 28 junio 2013.

¹Residente Neurocirugía. ²Médico adscrito al Servicio de Neurocirugía. ³Jefe de Servicio de Neurocirugía, Hospital Juárez de México. Correspondencia: Víctor Hugo Escobar de la Garma. Av. Instituto Politécnico Nacional # 5133. Col. Magdalena de las Salinas. 07760. México, D.F. E-mail: tataboxboy@yahoo.com

Las funciones mentales valorables se encontraron sin anomalías. La exploración de los nervios craneales no arrojó datos anormales. A la exploración del sistema motor encontramos hemiparesia derecha discreta graduada como 4/5, sin datos relevantes en la exploración de sistema sensitivo. Leve rigidez de nuca fue encontrada inicialmente.

Se valoró tomografía computada inicial realizada en hospital regional donde se encontró disminución en la amplitud de giros y surcos cerebrales del lado izquierdo, sin afectación en la relación sustancia gris-blanca con presencia de hiperdensidades en cisternas basales predominando el lado izquierdo, proyectándose hacia fisura silviana del mismo lado con imagen redondeada hiperdensa localizada en el sitio de la bifurcación de la arteria carótida interna izquierda, sugestiva de hemorragia subaracnoidea Fisher III secundaria a ruptura aneurismática. No se encontraron desviaciones de la línea media ni asimetrías en el sistema ventricular.

Se realizó angiorresonancia magnética que confirmó la presencia de un aneurisma sacular pequeño de 4 x 2 mm con cuello estrecho (2.02 mm) localizado en la bifurcación de arteria carótida interna izquierda. Como hallazgo adicional encontramos hipoplasia del segmento A1 de arteria cerebral anterior ipsilateral (figuras 1 y 2).



Figura 1. Angiorresonancia magnética en vista PA que demuestra aneurisma sacular de cuello estrecho que se origina de la bifurcación de la arteria carótida interna izquierda.

Se intervino quirúrgicamente después de dos semanas de iniciado el *ictus* mediante abordaje pterional y *clipaje* de aneurisma de manera convencional. El paciente mostró mejoría de síntomas motores subsecuentemente.

Seis meses después de la cirugía se realizó angiografía cerebral diagnóstica corroborando adecuado clipaje y ausencia de lesiones vasculares con conveniente flujo por arteria cerebral anterior y media ipsilaterales (figuras 3 y 4).

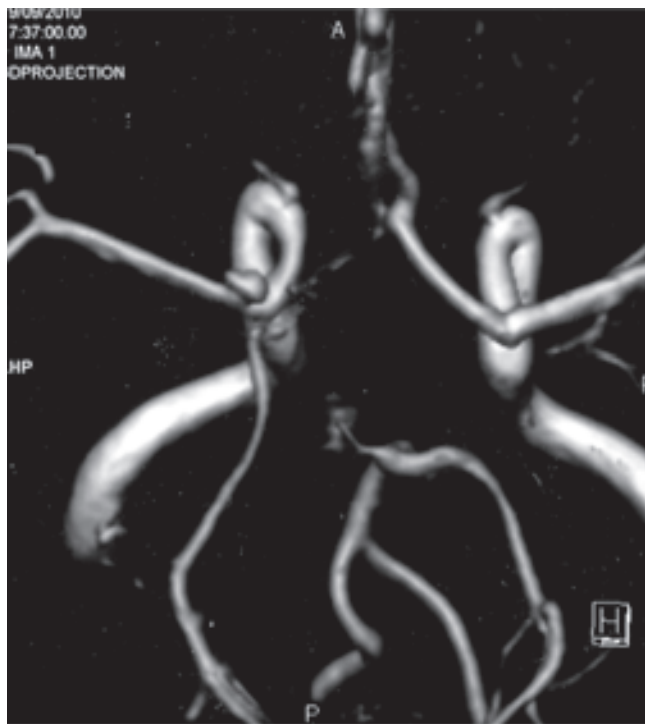


Figura 2. Vista superior de angiografía por resonancia magnética (PA) que muestra hipoplasia del segmento A1 de arteria cerebral anterior ipsilateral al aneurisma.

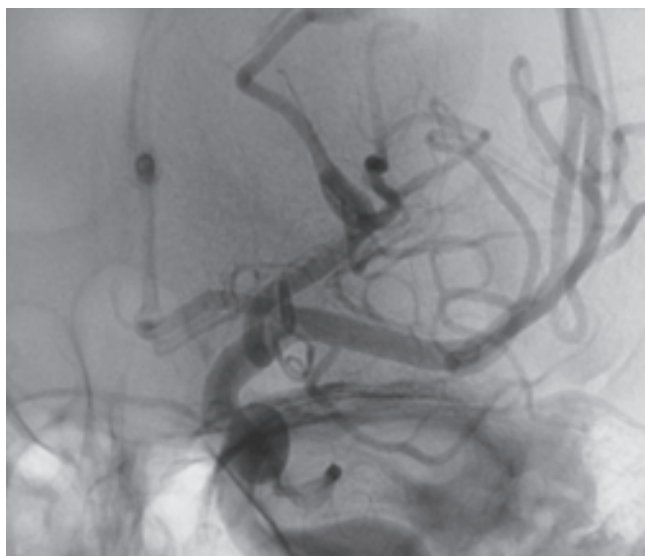


Figura 3. Angiografía cerebral diagnóstica en vista AP que muestra clip colocado en la bifurcación de la arteria carótida interna sin evidencia de lesiones vasculares.

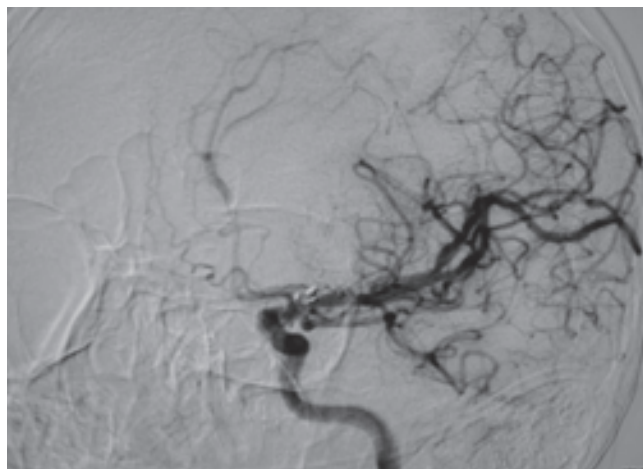


Figura 4. Angiografía cerebral diagnóstica en vista oblicua que demuestra adecuado flujo por arteria cerebral media y cerebral anterior sin evidencia de lesiones vasculares con adecuada colocación de clip en bifurcación de arteria carótida interna.

DISCUSIÓN

Los aneurismas intracraneales en la edad infantil son una rara entidad que difiere en muchos aspectos con su contraparte en adultos⁴. Los aneurismas infantiles constituyen de 0.1 a 4.6% de todos los casos de aneurismas^{3,5,6}. De acuerdo a lo documentado hasta hace dos años, se han reportado aproximadamente 700 casos hasta la fecha⁷. Los aneurismas en edad adolescente corresponden al 0.91% de todos los casos poblacionales¹.

La edad promedio de presentación es de 7.6 años, predominando los casos del sexo masculino discretamente, siendo la relación hombre:mujer de 1.67:1¹. De acuerdo a Krings *et al*, haciendo una estratificación por edad existe predominancia marcada de casos femeninos antes de los dos años (relación h:m 1:4)⁸, que se reversa completamente de los 2 a los 5 años (h:m 4:1), por último de los 5 a 16 años predominan discretamente los varones que padecen este tipo de lesiones (h:m 3:2)⁹. Existe además, predominancia de lesiones del lado izquierdo en todas las edades independientemente del sexo¹⁰.

La localización más frecuente difiere en diversas series, siendo desde reportes iniciales bifurcación de la arteria carótida interna; la región predominante de aneurismas infantiles; sin embargo, algunas series han reportado bifurcación de la arteria cerebral media como la región de mayor involucro⁵; sin embargo, haciendo una comparación con población adulta, los aneurismas de la arteria carótida interna son cinco veces más prevalentes en población pediátrica⁹. Tomando en cuenta la totalidad de aneurismas en población infantil, abundan más los de la circulación anterior (75%)¹.

A diferencia de la población adulta, la localización dentro de la circulación posterior no es poco frecuente en población pediátrica, siendo del 25 hasta 38.98% en algunas series^{1,5,11}. Los aneurismas encontrados en circulación posterior son tres veces más prevalentes en edad pediátrica comparados con la población adulta⁹.

En población pediátrica la presentación clínica más frecuente de enfermedad aneurismática corresponde en un 78.2% a hemorragia subaracnoidea, y déficits neurológicos por efecto compresivo de lesiones gigantes le siguen en 18.2% de los casos^{12,13}. Entre 42 a 100% de los casos de hemorragia subaracnoidea se presentan con clasificación de Hunt y Hess buena (considerada de I a III)¹, la hemorragia subaracnoidea tiene un comportamiento bimodal, predominando en pacientes de 2 a 5 años, en mayores de 15 años⁹. La mayoría de casos con grados bajos de Hunt y Hess pueden representar el hecho que los pacientes con grados altos no llegan a las unidades hospitalarias, o puede correlacionarse con una alta colateralidad y vascularización leptomenígea, circunstancia que está asociada a una alta tolerancia a vasoespasmo secundario a hemorragia subaracnoidea.

El efecto de masa como segunda presentación más frecuente se debe a que existe una alta prevalencia de aneurismas complejos en edad pediátrica (aneurismas gigantes, fusiformes, micóticos o infecciosos, traumáticos y disecantes), lo cual ha generado el concepto de vasculopatías aneurismáticas^{5,9} en estos pacientes, que es la consecuencia de pobres mecanismos de defensa de la pared de los vasos sanguíneos contra diversos factores ofensivos (trauma, inflamación, infección), a diferencia de los aneurismas encontrados en población adulta, en los cuales los factores intraluminales parecen tener un papel principal.

No es raro encontrar en este padecimiento factores asociados, como comorbilidades enfermedades familiares, inmunosupresión o infecciones crónicas que se encuentran asociadas en un 28% a enfermedad aneurismática infantil⁷. La historia de trauma también está asociada en 19% de casos infantiles con aneurismas intracraneales⁷.

Los aneurismas saculares representan el 20% de la totalidad de aneurismas infantiles, su localización más frecuente es en la circulación anterior, ya sea bifurcación de la arteria carótida interna o cerebral media^{9,14}. Su presentación predominante es la hemorragia subaracnoidea. Los aneurismas saculares gigantes (>25mm) tienen una frecuencia de 19.4%¹² de los casos totales de aneurismas en todas las edades, superando la frecuencia de los encontrados en edad adulta. Los aneurismas múltiples se dan entre 15.25 a 16.4%, siendo la gran mayoría de ellos asociados a enfermedades familiares o en pacientes inmunocomprometidos¹.

Algunas series han descrito frecuencia de aneuris-

mas traumáticos entre 14 a 39%¹⁴; por lo general, emergen tras un traumatismo cerrado de cráneo, causantes de hemorragias cerebrales tardías (una semana postrauma). Su localización más frecuente es el segmento cavernoso de la arteria carótida interna y ramas distales de la arteria cerebral anterior⁵.

Los aneurismas micóticos o infecciosos fueron descritos desde 1901, cuentan por 15% de los aneurismas infantiles⁹. Son la consecuencia de infecciones bacterianas con sepsis en cuyo caso los agentes etiológicos con frecuencia encontrados son: *staphylococcus aureus* y *streptococcus viridans*, además de bacterias gram negativas. La localización de estas lesiones por daño bacteriano es en vasos corticales distales. La localización de estos aneurismas en arteria carótida supraclinoidea o arteria cerebral media es más común encontrarla en el contexto de pacientes con viremia^{5,9}.

Los aneurismas disecantes representan el 50% de aneurismas pediátricos¹⁵ explicando; así la, alta frecuencia de problemas murales en esta edad. Este tipo de aneurismas se dan a consecuencia de un desgarro transmural o subintimal, expresándose como hemorragia subaracnoidea, isquemia cerebral por migración de émbolos a ramas distales o lesiones vasculares gigantes con efecto compresivo a estructuras adyacentes. Estos aneurismas se encuentran con más frecuencia en la circulación posterior y tienen mayor propensión a sangrado comparado con las demás variedades⁹.

En los últimos años ha surgido preocupación acerca de la eficacia y seguridad del tratamiento de estas lesiones¹⁶. Aunque las tasas de éxito son similares para el clipaje microquirúrgico y tratamiento endovascular, algunos autores consideran a la microcirugía como mejor alternativa para obtener mejores tasas de obliteración, por ser un tratamiento definitivo y más durable⁷, sobre todo en estos pacientes cuya sobrevida esperada es de cinco a siete décadas. La colocación de coils por vía endovascular puede tener recurrencias hasta de 20% en algunas series^{7,17}.

La mortalidad y estancia intrahospitalaria de pacientes con estas lesiones no ha declinado desde 1997, el costo de los procedimientos quirúrgicos acorde a Vasan, et al. ha ascendido el 6%, mientras que los costos de la terapia endovascular ascienden a 50% en los últimos años, siendo el tratamiento más socorrido en los últimos años en esta población¹⁰. El pronóstico de ambos tratamientos hasta en un 90% es bueno en estos pacientes¹².

CONCLUSIÓN

La enfermedad aneurismática infantil debe ser evaluada sistemáticamente como una vasculopatía cuyo

tratamiento depende de la variedad con la que se esté lidiando. A pesar de que el tratamiento endovascular y microquirúrgico tienen buen pronóstico y baja mortalidad, la cirugía se ha proclamado como el manejo más durable, eficaz y definitivo. Es necesario el seguimiento a largo plazo y la creación de estudios prospectivos para esclarecer estas interrogantes.

REFERENCIAS

1. Liang JT, Huo LR, Bao YH, Zhang HQ, Wang ZY, Ling F. Intracranial aneurysms in adolescents. *Childs Nerv Syst* 2011;27(7):1101-7.
2. Yang M, Wang S, Zhao Y, Zhao J. Management of intracranial aneurysm in children: clipped and coiled. *Childs Nerv Syst* 2008;24(9):1005-12.
3. Aryan HE, Giannotta SL, Fukushima T, Park MS, Ozgur BM, Levy ML. Aneurysms in children: review of 15 years experience. *J Clin Neurosci* 2006;13(2):188-92.
4. Wojtacha M, Bazowski P, Mandera M, Krawczyk I, Rudnik A. Cerebral aneurysms in childhood. *Childs Nerv Syst* 2001;17(1-2):37-41.
5. Lasjaunias P, Wuppalapati S, Alvarez H, Rodesch G, Ozanne A. Intracranial aneurysms in children aged under 15 years: review of 59 consecutive children with 75 aneurysms. *Childs Nerv Syst* [Review]. 2005;21(6):437-50.
6. Liang J, Bao Y, Zhang H, Wrede KH, Zhi X, Li M, et al. The clinical features and treatment of pediatric intracranial aneurysm. *Childs Nerv Syst* 2009;25(3):317-24.
7. Sanai N, Augustine KI, Lawton MT. Microsurgical management of pediatric intracranial aneurysms. *Childs Nerv Syst* 2010; 26(10):1319-27.
8. Buis DR, van Ouwkerk WJ, Takahata H, Vandertop WP. Intracranial aneurysms in children under 1 year of age: a systematic review of the literature. *Childs Nerv Syst* [Rev]. 2006; 22(11):1395-409.
9. Krings T, Geibprasert S, terBrugge KG. Pathomechanisms and treatment of pediatric aneurysms. *Childs Nerv Syst* [Rev]. 2010; 26(10):1309-18.
10. Vasan R, Patel J, Sweeney JM, Carpenter AM, Downes K, Youssef AS, et al. Pediatric intracranial aneurysms: current national trends in patient management and treatment. *Childs Nerv Syst* 2013;29(3):451-6.
11. Ostergaard JR, Voldby B. Intracranial arterial aneurysms in children and adolescents. *J Neurosurg* 1983;58(6):832-7.
12. Sharma BS, Sinha S, Mehta VS, Suri A, Gupta A, Mahapatra AK. Pediatric intracranial aneurysms-clinical characteristics and outcome of surgical treatment. *Childs Nerv Syst* 2007;23(3): 327-33.
13. Pasqualin A, Mazza C, Cavazzani P, Scienza R, DaPian R. Intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage in children and adolescents. *Childs Nerv Syst* 1986;2(4):185-90.
14. Meyer FB, Sundt TM, Jr., Fode NC, Morgan MK, Forbes GS, Mellinger JF. Cerebral aneurysms in childhood and adolescence. *J Neurosurg* [Case Reports Res Sup, Non-U.S. Gov't Review]. 1989;70(3):420-5.
15. Requejo F, Ceciliano A, Cardenas R, Villasante F, Jaimovich R, Zuccaro G. Cerebral aneurysms in children: are we talking about a single pathological entity? *Childs Nerv Syst* 2010; 26(10):1329-35.
16. Sanai N, Quinones-Hinojosa A, Gupta NM, Perry V, Sun PP, Wilson CB, et al. Pediatric intracranial aneurysms: durability of treatment following microsurgical and endovascular management. *J Neurosurg* 2006;104(2 Suppl):82-9.
17. Laughlin S, Terbrugge KG, Willinsky RA, Armstrong DC, Montanera WJ, Humphreys RP. Endovascular management of paediatric intracranial aneurysms. *Interv Neuroradiol* 1997; 30;3(3):205-14.