

Asociación rara de aneurisma gigante no roto de la carótida interna intracavernosa con fístula espontánea del seno cavernoso contralateral: Evaluación con resonancia magnética

Ernesto Roldán-Valadez,* Pedro Hernández-Martínez,** Roberto Corona-Cedillo,* Manuel Martínez-López,*

Resumen

Los aneurismas de la porción intracavernosa de la arteria carótida coexistentes con fístula carotido-cavernosa (FCC) no son comunes en la literatura. Cuando se rompen causan una FCC más que sangrado en el espacio subaracnoideo. El tratamiento de elección es el abordaje endovascular. *Caso clínico:* Masculino de 65 años que desarrolla cefalea bitemporal en un periodo de 24 horas, la angiografía por resonancia magnética y la angiografía con sustracción digital mostraron un aneurisma gigante no roto de la arteria carótida intracavernosa izquierda con una fístula que comunicaba el aneurisma con el seno cavernoso del lado derecho, con extensión del aneurisma dentro del seno esfenoidal. Basados en la clasificación de Barrow, este caso se describe como una fístula tipo A, este tipo es usualmente rara, tiene flujo alto y está asociada a un evento traumático; en este paciente su origen fue espontáneo. En la presentación de este caso, se muestran los hallazgos con resonancia magnética, angiorresonancia y angiografía cerebral con sustracción digital, así como una breve revisión de la literatura. En nuestro conocimiento, la coexistencia de un aneurisma cavernoso no roto con una FCC conectada al seno cavernoso contralateral, ha sido rara vez reportada.

Palabras clave: Aneurisma, angiografía cerebral, seno cavernoso, fístula carotido-cavernosa, resonancia magnética, angiografía.

Abreviaturas: ACII, aneurisma de la carótida intracavernosa idiopático; ACE, arteria carótida externa; ACI, arteria carótida interna; FAVD, fístula arteriovenosa dural; FCC, fístula carotido-cavernosa; HSA, hemorragia subaracnoidea.

* Unidad de Resonancia Magnética. Fundación Clínica Médica Sur. México, Distrito Federal.

** Jefe de Neuroradiología. Departamento de Radiología. Hospital Juárez de México. Secretaría de Salud. México, Distrito Federal.

Fundación Clínica Médica Sur. México, D.F.

Abstract

Aneurysms of the intracavernous portion of the carotid artery related with carotid-cavernous sinus fistulas (CCSF's) are not often described in the literature. If rupture they can cause a CCSF's rather than bleeding into the subarachnoid space. Treatment of choice is the endovascular approach. Case report: A 65-year-old male developed bitemporal headache over a period of 24 hours, MR angiography and Digital Subtraction angiography depicted unruptured left-side intracavernous carotid artery aneurysms with a fistula communicating the aneurysm with the right-sided cavernous sinus; there was also projection of the aneurysm into the sphenoid sinus. Based on the classification of Barrow et al. our patient's fistula fits as a type A fistula, this type is usually rare, with a high-speed flow associated to a traumatic event; in our patient it was spontaneous. In presenting this case, we show the MR, MR angiography and cerebral digital subtraction angiography findings of this case as well as a brief review; to the best of our knowledge the coexistence of an unruptured cavernous aneurysm with a CCSF's connected to the contralateral cavernous sinus is rarely reported.

Key words: Aneurysm, cerebral angiography, cavernous sinus, carotid-cavernous fistula, magnetic resonance, angiography.

Introducción

Los aneurismas de la porción intracavernosa de la arteria carótida interna (ACI) representan el 3-5% de todos los aneurismas intracraneales¹⁻⁴ y un 14% de todos los aneurismas que se originan de la ACI;^{5,6} de todas las variedades, los aneurismas de la carótida intracavernosa idiopáticos (ACII) son los más comunes.⁷ La evaluación por imagen de los aneurismas cavernosos necesita una descripción precisa de la anatomía de la arteria carótida para lo cual se recomienda una modificación de la nomenclatura de Fischer (*Tabla I*).⁸ Las fístulas carotido-cavernosas (FCC) son comunicacio-

nes anormales entre la arteria carótida y el seno cavernoso.

ACII generalmente causan síntomas debido a la expansión gradual sin ruptura, cuando la ruptura ocurre, esto lleva a una fistula carotido-cavernosa y ocasionalmente a una hemorragia subaracnoidea (HSA) si el aneurisma se extiende hasta la duramadre.⁹ Presentamos el caso de un ACII de lado izquierdo no roto, con fistula del seno cavernoso contralateral; se documentó también extensión del aneurisma hacia el seno esfenoidal, se presenta una breve revisión de la literatura.

Historia clínica

Masculino de 65 años que desarrolla cefalea bitemporal en un periodo de 24 horas. Su historia clínica incluye diabetes mellitus diagnosticada hace ocho años (recibe glibenclamida), sin otros antecedentes de importancia. Dos días previos al evento el paciente refiere diplopía aguda y es referido a este hospital.

El paciente no muestra signos de patología del tejido conectivo. Los antecedentes familiares son negativos. En la admisión el paciente está alerta y orientado, el examen físico muestra oftalmoplejía del ojo izquierdo con parálisis del VI par craneal, no se documentó paresia o alteración de movimiento en el ojo derecho. El examen del fondo de ojo mostró papila normal en ambos ojos. La pupila derecha midió 3 mm y reaccionó normalmente a la luz, la pupila izquierda midió 5 mm, no respondió a la luz, y mostró un defecto pupilar aferente. No hubo evidencia de soplo craneal. La biometría hemática, electrolitos séricos, examen general de

orina, tiempos de coagulación y cuenta plaquetaria fue normal.

En vista de los hallazgos neurológicos, se programó una resonancia magnética (RM) que mostró un ACII gigante (2.9 cm) izquierdo, con el saco aneurismático protruido al interior del seno esfenoidal medial a la bifurcación carotídea (*Figuras 1 A, B, C y D*).

La angio RM mostró el ACII gigante, parcialmente trombosado (*Figuras 2 A y B*). El diagnóstico se confirmó con angiografía con substracción digital: se demostró que el aneurisma llenaba solamente por la arteria carótida interna izquierda con una fistula proveniente de la arteria carótida en la base del aneurisma y que drenaba al seno cavernoso de lado derecho, (*Figuras 2 C y D*); la fistula fue clasificada como una FCC directa, espontánea tipo A. El saco aneurismático mostró protrusión al interior del seno esfenoidal con evidencia de trombosis parcial.

En base a la clasificación de Barrow y cols.¹⁰ esta FCC se clasifica como una fistula tipo A, directa, espontánea; coexistiendo con un aneurisma gigante, no roto en la porción C4 de la carótida (no expuesta al espacio subaracnoideo).

Debido a situaciones de tipo administrativo, el paciente solicita su alta voluntaria y continúa su tratamiento en otra institución.

Discusión

La anatomía quirúrgica de la arteria carótida-cavernosa y los elementos óseos, nerviosos y de tejidos blandos han sido ampliamente descritos.¹¹ Las conexiones y relaciones del seno cavernoso con la carótida interna, nervios craneales III, IV, VI, V2, V1 y medialmente la hipófisis; confieren al seno cavernoso un interés especial para neurólogos, oftalmólogos, otorrinolaringólogos y endocrinólogos, además de neurocirujanos.¹¹

Los ACII son distintos de otros aneurismas intracraneales en su anatomía, presentación y evolución clínica. Se originan de la porción intracavernosa de la arteria carótida interna, el saco aneurismático es confinado dentro del seno cavernoso y separado del espacio subaracnoideo por recubrimiento dural. Los AACII se presentan en forma clásica con signos y síntomas locales que incluyen dolor retroocular, cefalea, diplopía, oftalmoplejía, ptosis, proptosis, y anestesia o parestesia facial. El curso clínico es variable de la remisión espontánea, a la progresión sintomática gradual o incluso a la ruptura.¹²

Tabla I. Nomenclatura propuesta por *Origitano y cols*⁸ para aneurismas del seno cavernoso.

Localización	C1	Bifurcación a la arteria comunicante posterior
	C2	Arteria comunicante posterior a anillo dural distal
	C3	Anillo dural proximal a anillo dural distal
	C4	Segmento horizontal intracavernoso
	C5	Segmento ascendente intracavernoso
Tamaño	S (small)	< 1.0 cm
	L (large)	1.0-2.5 cm
	G (giant)	> 2.5 cm
Exposición al espacio subaracnoideo	N	No expuesto
	E	Expuesto

Existen diferentes clasificaciones de las FCC dependiendo de su anatomía, etiología y fisiopatología, una de ellas las divide en traumáticas o espontáneas, otra clasificación se establece en relación al suministro vascular del seno cavernoso, en cuatro tipos:

El tipo A de Barrow,¹⁰ el caso de este paciente, es extremadamente raro, consiste de una comunicación directa entre la ACI y el seno cavernoso, no representa una fístula verdadera arteriovenosa dural (FAVD), estas lesiones se caracterizan por una historia natural benigna y por su baja frecuencia de hemorragia subaracnoidea.¹³ Usualmente son lesiones de alto flujo que se desarrollan después de trauma, con una resolución espontánea rara.

El tipo B, comunicación entre ramas meníngeas de la carótida interna y el seno cavernoso.

El tipo C, comunicación entre ramas meníngeas de la carótida externa y el seno cavernoso; y el tipo D comunicación entre ramas meníngeas de la carótida interna y externa al seno cavernoso, todas éstas son fístulas durales de bajo flujo que pueden originarse espontáneamente (*Figura 3*).^{10,14}

Las FCC puede clasificarse adicionalmente en directas (de alto flujo) e indirectas (de bajo flujo) debido a que el manejo terapéutico depende de la hemodinámica.^{15,16} Finalmente, considerando la etiología, hay varias etiologías responsables del desarrollo de FCC: trauma

craneal cerrado o penetrante, lesión quirúrgica, ruptura de un aneurisma intracavernoso, enfermedades del tejido conectivo, patología vascular y fístulas durales.^{17,18}

Las FCC directas, son causadas principalmente por un desgarramiento en la arteria carótida interna. En la mayoría de los casos, estas FCC son de alto flujo, y el cierre espontáneo es raro; las FCC indirectas son alimentadas por ramas meníngeas de arterias extracraneales o intracraneales adyacentes, en este tipo de fístulas, el cierre espontáneo puede esperarse en algunos casos, sin embargo, la presentación clínica es el factor más importante que guía el diagnóstico. Si el paciente tiene deterioro visual o alteración de nervios craneales (como en este caso), el tratamiento debe realizarse tan pronto como sea posible para descomprimir los nervios afectados y evitar un daño irreversible. En este aneurisma no roto, el comienzo repentino de los síntomas clínicos puede ser explicado por la elevación súbita de la presión sanguínea dentro del seno cavernoso. El III, IV, y VI nervios craneales se encuentra adyacentes a la pared lateral del seno cavernoso, siendo el VI el más cercano a la pared de la arteria carótida interna.

La oftalmoplejía es debida a la presión y distensión de los nervios dentro de la pared dural, de las estructuras trabeculares del seno cavernoso. Los signos de

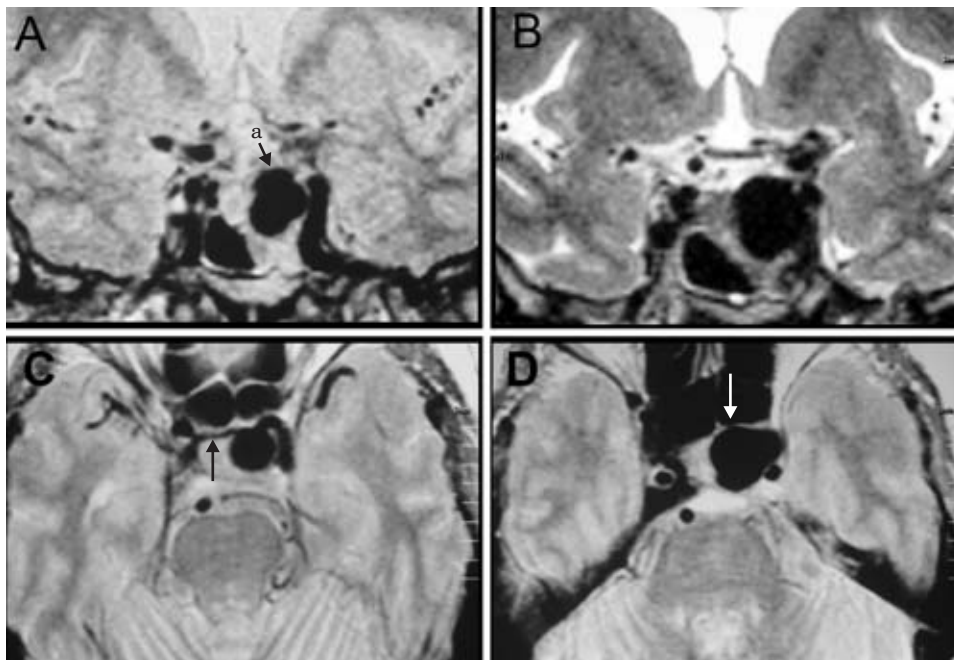


Figura 1. A; Densidad de protones, RM coronal muestra el saco aneurismático que protruye hacia el seno esfenoidal medial a la carótida cavernosa (flecha negra pequeña, a). B; RM coronal secuencia T2, se muestra el saco aneurismático dentro del seno esfenoidal. C; RM ponderada en T2 axial, muestra la fístula que conecta el seno intercavernoso y cuello del aneurisma cavernoso con el seno cavernoso del lado derecho (flecha negra). D; RM axial ponderada en T2 que muestra el saco aneurismático con su domo que se proyecta en la línea media con ausencia de señal en el interior (flecha blanca).

la fistula arteriovenosa típica no estuvieron presentes en el caso de este paciente, no se documentó quemosis, soplo o pulsación sobre el globo ocular. La vena oftálmica superior no estuvo dilatada, lo cual sugiere un flujo de salida adecuado del seno cavernoso al seno petroso en ambos lados, vía del seno intercavernoso. En resumen, la sintomatología fue más característica de una lesión que ocupa el seno cavernoso que el de una fistula arteriovenosa.

La evaluación por imagen de los AACIIs y de las FSC se han basado en RM y en angio RM, sin embargo la desventaja de sus procedimientos es la falta de intervención. La angiografía digital es el estándar de oro para el diagnóstico con inyección selectiva de contraste en carótida interna, carótida externa y vertebrales (técnica de cuatro vasos).⁸

Para que se origine una HAS en un ACII, una porción del aneurisma debe extenderse a través de la dura del seno cavernoso. Esta situación es más probable que ocurra con un ACII que se origine de la rodilla anterior del sifón carotídeo, con ACII gigantes, o con ACII que erosionan la silla turca.^{12,19}

La resolución espontánea de una FCC es rara y requiere seguimiento. La mortalidad por aneurismas cerebrales no tratados se relaciona directamente con hemorragia subaracnoidea resultante de la ruptura del aneurisma.⁷ Una razón probable de la baja mortalidad de ACII no tratados, es el hecho que la ruptura de és-

tos, es más probable que ocasionen la formación de una FCC que de una HSA, de hecho, la mayoría de FCC no traumáticas o espontáneas, alimentadas por la ACI se originan de la ruptura espontánea de un ACII.²⁰⁻²²

Las indicaciones para el tratamiento incluyen eventos isquémicos transitorios, hemorragia subaracnoidea, epistaxis, oftalmoplejía, dolor y pérdida progresiva de la visión.²³ Una fistula tipo A requiere tratamiento urgente debido a la pérdida visual progresiva o el deterioro neurológico. El tratamiento de elección actual es el abordaje vascular con oclusión selectiva del aneurisma o de la arteria carótida interna con o sin cirugía previa de «bypass». El abordaje quirúrgico con colocación de clip a la ACI es posible,²⁵ sin embargo, no ha demostrado ser efectivo, además éste evita el abordaje endovascular para tratar la fistula y puede inducir fenómeno de robo.²⁴

En los casos de un ACII, el tratamiento endovascular debe enfocarse solamente en el aneurisma con colocación de «stent y coils» o colocación de balón, como en los casos de FCC sin aneurisma. El efecto de masa sobre el seno cavernoso puede disminuirse porque en la mitad de los casos no es necesario insertar «coils» dentro del seno, lo que reduce el costo de tratamiento.²⁶

Los procedimientos de radiología intervencionista, pueden complicarse con embolización de la arteria dis-

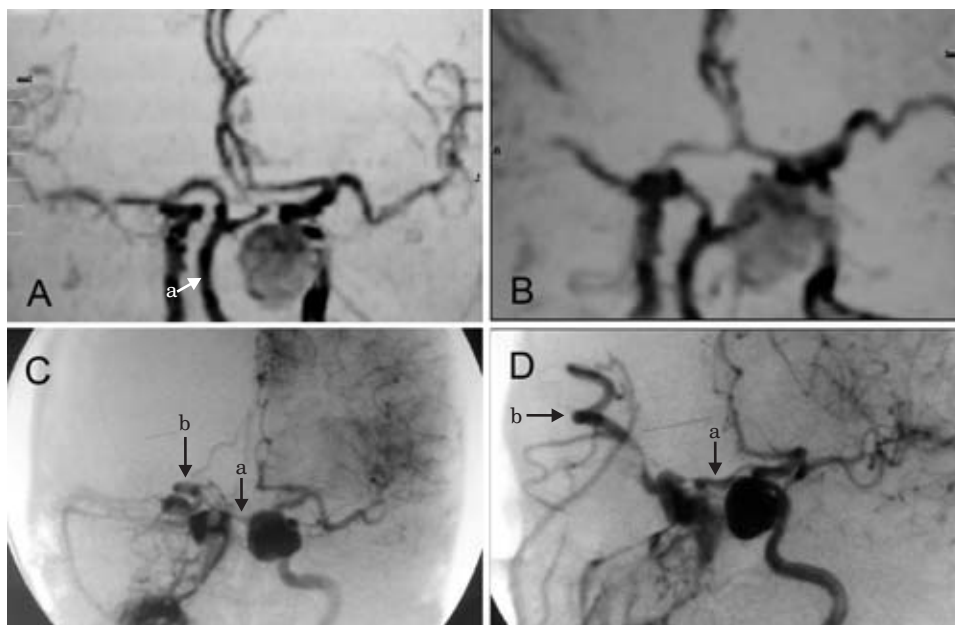


Figura 2. A, angio RM en proyección oblicua y B, proyección anteroposterior, muestra aneurisma de la arteria carótida intracavernosa con turbulencia del flujo (letra a, arteria basilar). C, angiografía convencional anteroposterior, secuencia arterial tardía muestra el seno intercavernoso así como la presencia de la FCC; D, proyección oblicua, la inyección de contraste en la carótida común izquierda muestra el aneurisma gigante de la carótida intracavernosa izquierda proyectándose hacia el seno esfenoidal. Se muestra la dilatación del seno intercavernoso y comunicación entre el cuello del aneurisma y el seno cavernoso derecho, se observa también la asimetría del seno cavernoso por presencia de la fistula (a), la angiografía también muestra dilatación de la vena oftálmica superior derecha (b).

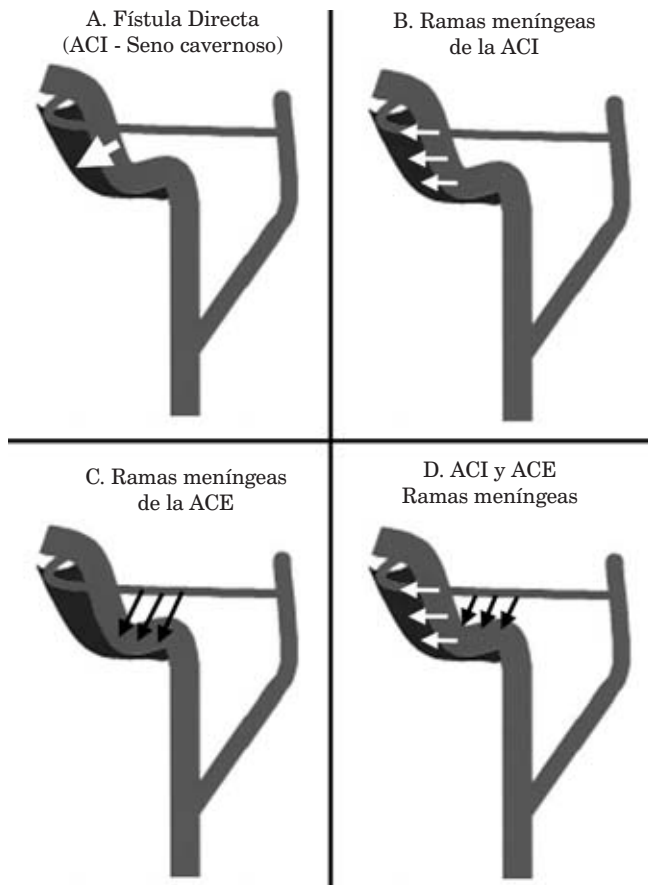


Figura 3. Clasificación de las fístulas del seno carotídeo-cavernoso, de acuerdo a Barrow,¹⁰ ACI, arteria carótida interna; ACE, arteria carótida externa.

tal y daño vascular, en estos casos en que se sospecha riesgo de complicaciones se indica un abordaje quirúrgico directo.^{27,28}

El objetivo del tratamiento es obliterar la fístula y el aneurisma, manteniendo permeable a la arteria carótida interna. La radiocirugía se ha usado en fístulas indirectas de bajo flujo, pero los efectos a largo plazo de la radiación al seno cavernoso no han sido bien definidos.^{29,30}

Referencias

1. Fox AJ, Vinuela F, Pelz DM, Peerless SJ, Ferguson GG, Drake CG et al. Use of detachable balloons for proximal artery occlusion in the treatment of unclippable cerebral aneurysms. *J Neurosurg* 1987; 66(1): 40-6.
2. Krayenbuhl H. [Proceedings: Classification and clinical symptomatology of cerebral aneurysms]. *Ophthalmologica* 1973; 167(2): 122-64.
3. Locksley HB. Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 1966; 25(3): 321-68.
4. Scialfa G, Vaghi A, Valsecchi F, Bernardi L, Tonon C. Neuro-radiological treatment of carotid and vertebral fistulas and intracavernous aneurysms. Technical problems and results. *Neuroradiology* 1982; 24(1): 13-25.
5. Locksley HB, Sahs AL, Sandler R. Report on the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. 3. Subarachnoid hemorrhage unrelated to intracranial aneurysm and A-V malformation. A study of associated diseases and prognosis. *J Neurosurg* 1966; 24(6): 1034-56.
6. Locksley HB, Sahs AL, Knowler L. Report on the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. Section II. General survey of cases in the central registry and characteristics of the sample population. *J Neurosurg* 1966; 24(5): 922-32.
7. Linskey ME, Sekhar LN, Hirsch WL, Jr, Yonas H, Horton JA. Aneurysms of the intracavernous carotid artery: natural history and indications for treatment. *Neurosurgery* 1990; 26(6): 933-7; discussion 937-8.
8. Origiano TC, Al-Mefty O. Chapter 55. Aneurysms of the cavernous sinus: Treatment options and considerations. In: Youmans JR, ed. *Youmans: Neurological Surgery*. 4th ed. Vol. 3. Philadelphia, PA: W.B. Saunders Company; 2000: 2529-2539.
9. van Rooij WJ, Sluzewski M, Beute GN. Ruptured cavernous sinus aneurysms causing carotid cavernous fistula: Incidence, clinical presentation, treatment, and outcome. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; 27(1): 185-9.
10. Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tindall GT. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg* 1985; 62(2): 248-56.
11. Harris FS, Rhoton AL. Anatomy of the cavernous sinus. A microsurgical study. *J Neurosurg* 1976; 45(2): 169-80.
12. Linskey ME, Sekhar LN, Hirsch W Jr, Yonas H, Horton JA. Aneurysms of the intracavernous carotid artery: clinical presentation, radiographic features, and pathogenesis. *Neurosurgery* 1990; 26(1): 71-9.
13. Horowitz M, Levy E, Bonaroti E. Cavernous carotid origin aneurysm rupture with intracerebral intraparenchymal hemorrhage after treatment of a traumatic Barrow type A cavernous carotid artery fistula. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; 27(3): 524-6.
14. Peeters FL, Kroger R. Dural and direct cavernous sinus fistulas. *AJR Am J Roentgenol* 1979; 132(4): 599-606.
15. Desal H, Leaute F, Auffray-Calvier E, Martin S, Guillon B, Robert R et al. [Direct carotid-cavernous fistula. Clinical, radiologic and therapeutic studies. Apropos of 49 cases]. *J Neuroradiol* 1997; 24(2): 141-54.
16. Vinuela F, Fox AJ, Debrun GM, Peerless SJ, Drake CG. Spontaneous carotid-cavernous fistulas: clinical, radiological, and therapeutic considerations. Experience with 20 cases. *J Neurosurg* 1984; 60(5): 976-84.
17. Hirai T, Korogi Y, Goto K, Ogata N, Sakamoto Y, Takahashi M. Carotid-cavernous sinus fistula and aneurysmal rupture associated with fibromuscular dysplasia. A case report. *Acta Radiol* 1996; 37(1): 49-51.

18. Taki W, Nakahara I, Nishi S, Yamashita K, Sadatou A, Matsumoto K et al. Pathogenetic and therapeutic considerations of carotid-cavernous sinus fistulas. *Acta Neurochir* (Wien) 1994; 127(1-2): 6-14.
19. Diaz FG, Ohaegbulam S, Dujovny M, Ausman JI. Surgical management of aneurysms in the cavernous sinus. *Acta Neurochir* (Wien) 1988; 91(1-2): 25-8.
20. Charlin JF, Clavier E, Thiebot J, Brasseur G, Langlois J. [Cavernous fistula caused by rupture of an aneurysm of the trigeminal artery. Case report]. *Rev Otoneuroophthalmol* 1982; 54(3): 249-54.
21. Lesoin F, Jomin M. [Intracerebral haematoma complicating the course of a traumatic arteriovenous aneurysm of the cavernous sinus (author's transl)]. *Rev Otoneuroophthalmol* 1982; 54(1): 53-9.
22. Schubiger O, Valavanis A, Hayek J. Computed tomography in cerebral aneurysms with special emphasis on giant intracranial aneurysms. *J Comput Assist Tomogr* 1980; 4(1): 24-32.
23. Horowitz M, Fichtel F, Samson D, Purdy P. Intracavernous carotid artery aneurysms: the possible importance of angiographic dural waisting. A case report. *Surg Neurol* 1996; 46(6): 549-52.
24. Voris HC. Complications of ligation of the internal carotid artery. *J Neurosurg* 1951; 8(1): 119-31.
25. Jafar JJ, Huang PP. Surgical treatment of carotid cavernous aneurysms. *Neurosurg Clin N Am* 1998; 9(4): 755-63.
26. Wanke I, Doerfler A, Stolke D, Forsting M. Carotid cavernous fistula due to a ruptured intracavernous aneurysm of the internal carotid artery: treatment with selective endovascular occlusion of the aneurysm. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2001; 71(6): 784-7.
27. Debrun GM, Davis KR, Nauta HJ, Heros RE, Ahn HS. Treatment of carotid cavernous fistulae or cavernous aneurysms associated with a persistent trigeminal artery: report of three cases. *AJNR Am J Neuroradiol* 1988; 9(4): 749-55.
28. Halbach VV, Hieshima GB, Higashida RT, Reicher M. Carotid cavernous fistulae: indications for urgent treatment. *AJR Am J Roentgenol* 1987; 149(3): 587-93.
29. Barcia-Salorio JL, Soler F, Barcia JA, Hernandez G. Stereotactic radiosurgery for the treatment of low-flow carotid-cavernous fistulae: results in a series of 25 cases. *Stereotact Funct Neurosurg* 1994; 63(1-4): 266-70.
30. Yasunaga T, Takada C, Uozumi H, Saito Y, Ueno S, Hatanaka Y et al. Radiotherapy of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 1987; 13(12): 1909-13.

Correspondencia:
 Dr. Ernesto Roldán Valadez
 Unidad de Resonancia Magnética
 Fundación Clínica Médica Sur
 Puente de Piedra Núm. 150
 Col. Toriello Guerra
 ernest.roldan@usa.net