

Fístulas arteriovenosas espinales durales: ¿tratamiento precoz endovascular o quirúrgico?



Spinal dural arteriovenous fistulas: Early endovascular treatment or surgery?

Sr. Editor:

Hemos leído con gran interés el artículo titulado «Fístulas arteriovenosas espinales del adulto. Manejo de una serie de casos desde una planta de Neurología», publicado por Ortega-Suero et al. en la revista NEUROLOGÍA¹. En dicho trabajo se han analizado de forma retrospectiva los resultados de una serie de 10 pacientes con fistulas arteriovenosas espinales tratados durante un período de 3 años en su centro hospitalario¹. En primer lugar, queremos felicitar a los autores por la publicación de esta serie de pacientes, la segunda serie moderna de fistulas arteriovenosas espinales tratada en España^{1,2}. En su trabajo, Ortega-Suero et al. incluyen 6 casos de fistulas arteriovenosas espinales durales (FAVED)¹, sobre las que queremos centrar la discusión de nuestra carta, puesto que representan más del 75% de las malformaciones vasculares espinales. Compartimos la opinión de los autores de que a pesar del gran avance obtenido con las técnicas de neuroimagen actualmente disponibles, las FAVED no son fáciles de diagnosticar. Sin embargo, y pese a su rareza, es fundamental tener presente esta afección en el diagnóstico diferencial de pacientes con síntomas de mielopatía y/o radiculopatía progresivas, puesto que, de no diagnosticarse y tratarse precozmente, el pronóstico neurológico de las FAVED puede ser funesto. Hasta un 25-30% de los pacientes manifiestan ya paraplejía en el momento en que una FAVED se diagnostica³. Además, un porcentaje no despreciable de pacientes ya han sido sometidos previamente a intervenciones innecesarias de columna tras un diagnóstico etiológico incorrecto de sus síntomas neurológicos, atribuidos, bien a estenosis de canal, bien a espondilolistesis o a hernia discal^{4,5}. Por otro lado, se mantiene la controversia respecto al tipo de tratamiento óptimo para las FAVED: si la primera elección debe ser una terapia endovascular o una intervención quirúrgica. En esta carta queremos hacer hincapié en 2 puntos fundamentales a tener en cuenta en el tratamiento de las FAVED: 1) los pacientes pueden presentar un deterioro neurológico rápidamente progresivo y, en este subgrupo concreto, debe considerarse la oclusión precoz de la fistula, aun cuando ya esté presente la paraplejía, porque se ha demostrado una mejoría de los déficits neurológicos en la mayoría de los casos tratados precozmente, y 2) el análisis de las series modernas demuestra que a pesar del constante perfeccionamiento de las técnicas de tratamiento endovascular, sus resultados todavía no son equiparables a los del tratamiento quirúrgico, ofreciendo este último unos porcentajes de oclusión completa de la FAVD más elevados en numerosas series, asociando además una baja morbilidad en los pacientes intervenidos.

Los pacientes con FAVED pueden experimentar un deterioro neurológico grave y rápidamente progresivo

caracterizado por parálisis de los miembros inferiores y alteración esfinteriana, conocido como síndrome de Foix-Alajouanine y cuya fisiopatología no ha sido totalmente dilucidada todavía³. Según la teoría clásica, este síndrome se debería a una mielopatía necrótica irreversible por trombosis venosa. Sin embargo, la alta tasa de mejoría objetivada tras el tratamiento de las FAVED, incluso en los pacientes con paraplejía completa, evidencia que la alteración funcional de la médula espinal subyacente a un deterioro neurológico severo podría corresponder a una reducción en la perfusión del tejido nervioso secundaria a la hipertensión venosa^{3,5,6}. Una reducción crítica prolongada de la presión de perfusión de la médula puede conducir a un infarto medular, lo que explica que sea la duración de los síntomas, más que el grado de afectación neurológica en el momento del diagnóstico, el principal factor pronóstico para las FAVED^{3,4,7}. Hace 8 años nuestro grupo publicó un trabajo en el que analizábamos el pronóstico de 107 pacientes con FAVED y paraplejía en el momento del tratamiento. Aproximadamente un 75% de los pacientes experimentaron una mejoría de sus síntomas tras el tratamiento. Sin embargo, en la mayoría de los casos, el grado de mejoría fue limitado, de modo que menos de un 6% de pacientes consiguió caminar sin ayuda³. La ausencia de una recuperación completa o casi completa en la mayoría de estos pacientes muy probablemente tuvo relación con un retraso diagnóstico, pues el intervalo medio transcurrido desde el inicio de los síntomas hasta su diagnóstico definitivo fue de unos 20 meses³. En nuestro estudio, de los casos con paraplejía por FAVED, en aproximadamente 2 de cada 3 pacientes cuya exploración neurológica mejoró de una puntuación en la escala de Aminoff-Logue para la marcha de 5 (G5: confinado a silla de ruedas) a una puntuación de 1 (G1: debilidad sin restricción de la actividad física) tras el tratamiento, la duración del cuadro de paraplejía fue inferior a 24 h. En el resto de los casos en los que se objetivó una mejoría clínica tan importante, el tiempo de evolución del déficit neurológico había sido inferior a 2 meses³. Otras series también han observado que los pacientes con un tiempo de evolución de los síntomas más prolongado tienen menos probabilidad de mejorar significativamente tras la intervención^{4,7}. Por lo tanto, es muy importante que las FAVED se tengan presentes en el diagnóstico diferencial de cualquier paciente con debilidad en los miembros inferiores, parestesias y/o alteraciones esfinterianas de rápida progresión y origen indeterminado, especialmente en adultos de edad avanzada en los que la progresión clínica haya sido anormalmente rápida.

Respecto al tipo de tratamiento óptimo para las FAVED, el avance en las técnicas de embolización con el uso de agentes líquidos que pueden empujarse hacia el interior de la vena de drenaje, además de la facilidad que supone tratar la lesión al mismo tiempo que se realiza la arteriografía diagnóstica, están conduciendo a una tendencia ascendente del tratamiento endovascular en muchos centros. El deficiente entrenamiento y conocimiento de los neurocirujanos más jóvenes del tratamiento de la enfermedad vascular cerebral y espinal ha contribuido significativamente en España al predominio del tratamiento endovascular sobre el quirúrgico, tal y como se demuestra en la serie de casos tratados entre 2012 y 2015 por Ortega-Suero et al.¹. Sin embargo, una revisión de las series modernas de FAVED publicadas por los

Tabla 1 Series de fistulas arteriovenosas espinales durales publicadas en las últimas 2 décadas^a

Autor, año	Casos, n	Casos con paraplejia, n	Tiempo medio hasta diagnóstico, meses	Casos con evolución aguda, n	Tratamiento inicial, n		Tasa de obliteración completa con tratamiento inicial, %		Tasa de mejoría clínica global, %		Morbilidad, %	
					Embolización	Cirugía	Embolización	Cirugía	Embolización	Cirugía		
Atkinson et al. ⁸ , 2001	94	30	23	7	0	94	ND	99	ND	98	ND	4
Song et al. ⁹ , 2001	30	8	29	ND	23	7	78	100	57	ND	ND	
Van Dijk et al. ¹⁰ , 2002	49	ND	27,6	5	44	5	25	97,2	92	4,5	2,7	
Cenzato et al. ¹¹ , 2004	37	7	22	ND	13	24	77	100	78	0	0	
Jellema et al. ¹² , 2004	44	13	13,8	ND	34	10	54	100	70	3	10	
Steinmetz et al. ¹³ , 2004	19	5	19,2	1	0	19	ND	100	ND	44	ND	5,2
Andres et al. ¹⁴ , 2008	21	6	ND	ND	17	4	58	100	65	100	0	0
Cecchi et al. ¹⁵ , 2008	25	7	18	1	4	21	0	100	40	0	9	
Narvid et al. ¹⁶ , 2008	69	46	19	ND	39	24	69	80	65	50	0	0
Park et al. ¹⁷ , 2008	18	2	14,4	1	17	1	76,5	100	82,3	100	6	0
Prieto et al. ³ , 2009	107	107	20,4	5	25	82	58	97	73	ND	ND	
Saladino et al. ⁵ , 2010	154	8	24,7	20	0	154	ND	95	ND	82	ND	3
Ruiz-Juretschke et al. ² , 2011	19	3	12	2	9	10	55,6	100	44	70		16
Clark et al. ¹⁸ , 2013	23	0	12	2	15	8	46	90	18	70	ND	ND
Cho et al. ¹⁹ , 2013	32	21	5	0	27	5	85	100	50	18	20	
Gemmete et al. ²⁰ , 2013	33	ND	24,6	ND	29	4	82	100	45	3,4	0	
Kirsch et al. ²¹ , 2013	78	ND	13,9	ND	61	17	72	100	73,6	1,6	0	
Gokhale et al. ⁷ , 2014	27	3	11	ND	10	17	70	100	81	10	11,7	
Schuss et al. ²² , 2015	29	ND	21	4	0	29	ND	100	ND	76	ND	0
Gross et al. ²³ , 2017	71	0	ND	ND	28	42	50	100	80	80	11	11
Koch et al. ²⁴ , 2017	34	3	ND	16	20	14	65	100	85	93	15	14
Total	1.013	269	19	64	406	581	61	98	63	78	6	5

ND: no disponible; n: número de casos.

^a Solo se han incluido las series con más de 15 casos.

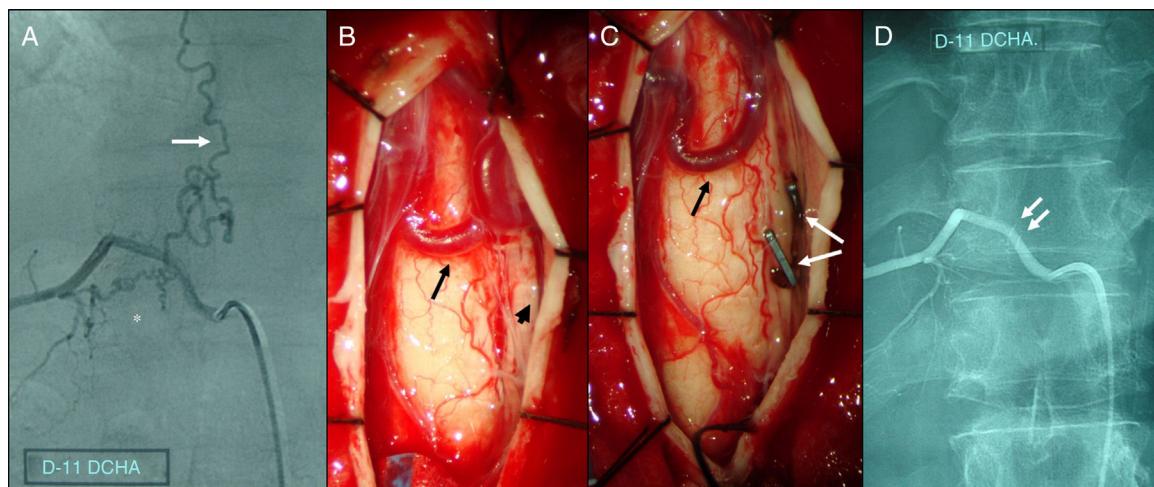


Figura 1 Arteriografía espinal y fotos intraoperatorias de una fistula arteriovenosa espinal dural dependiente de la arteria radicular derecha en D11. A: la arteriografía selectiva muestra una conexión fistulosa bajo el pedículo derecho del cuerpo vertebral de D11 (asterisco) entre la rama radiculomeníngea y la vena varicosa perimedular superior (flecha blanca). B: foto intraoperatoria tras haber realizado laminectomía D11 y durotomía, que muestra venas perimedulares tortuosas arterializadas (flecha negra) en íntima relación con la raíz nerviosa (cabeza de flecha negra). C: tras colocación de clips (flechas blancas), coagulación y sección de la vena de drenaje a nivel de la raíz, se objetiva el colapso inmediato y el oscurecimiento de las venas perimedulares (flecha negra). D: la arteriografía posquirúrgica demuestra la oclusión completa de la fistula. Las flechas señalan los 2 clips vasculares.

grupos internacionales más expertos muestra que en casi el 60% de los pacientes la terapia inicial elegida fue la oclusión quirúrgica de la fistula (**tabla 1**)^{2,3,5,7-24}. A pesar de la heterogeneidad inherente a estas series, todas muestran mejores resultados angiográficos y clínicos en los pacientes tratados con cirugía respecto a los tratados con técnicas endovasculares de embolización. Por un lado, el porcentaje deobliteración completa y permanente de la FAVED obtenida en un solo procedimiento fue de casi el 100% en los pacientes intervenidos quirúrgicamente, un porcentaje que se redujo al 61% de todos los casos tratados con embolización. Más importante resultó la comparación de los resultados clínicos entre los 2 tipos de tratamiento, pues casi un 80% de los pacientes tratados con cirugía experimentaron mejoría clínica, frente a solo un 63% de aquellos tratados con embolización. Además, algunas series evidencian que los pacientes sometidos a una intervención quirúrgica posterior a un tratamiento fallido endovascular, bien por oclusión incompleta de la FAVED, bien por repermeabilización de la misma, tienen un peor pronóstico clínico^{14,18}.

En relación con las complicaciones asociadas a ambos procedimientos, la oclusión microquirúrgica de las FAVED asocia una morbilidad baja, de en torno al 5%, una tasa similar a la observada con el tratamiento endovascular. Aunque el porcentaje de complicaciones sea similar entre ambos procedimientos, hay que tener presente que la embolización suele asociar complicaciones más graves, en las que suele comprometerse la función neurológica de forma irreversible. La introducción de material embolizador a través de un catéter no debería considerarse una terapia no invasiva, puesto que asocia un riesgo no despreciable de migración del material de embolización dentro del sistema venoso y/o perforación de la arteria radicular con el catéter, que pueden conducir a un daño catastrófico como el infarto medular, con pérdida de la función motora perma-

nente e irreversible en el territorio inervado por debajo del infarto^{7,19,21,23}. Además, los pacientes tratados con embolización se exponen a una dosis de radiación mayor de 5 Gy²⁴. Por el contrario, las complicaciones más frecuentes asociadas a la intervención neuroquirúrgica son las fistulas de líquido cefalorraquídeo y los pseudomeningoceles, que en ningún caso suponen déficits neurológicos permanentes. El tratamiento quirúrgico de las FAVED, consistente en la desconexión entre el nido dural y la vena de drenaje intradural, es una técnica relativamente simple cuando la lesión se ha diagnosticado y localizado intraoperatoriamente de forma correcta (**fig. 1**). Las principales dificultades técnicas para los cirujanos noveles o más inexpertos son, fundamentalmente, la localización precisa de la lesión en el campo quirúrgico y la certeza de haber logrado una oclusión completa de la fistula. Ambos problemas se han solventado en gran medida desde la introducción del verde de indocianina, un agente fluorescente que permite al cirujano diferenciar durante el procedimiento el flujo sanguíneo arterial y venoso de la FAVED. Basándonos en todas las consideraciones previas podemos concluir que la oclusión microquirúrgica sigue siendo el tratamiento más definitivo y seguro de las FAVED en la actualidad, independientemente de los más recientes progresos en las terapias endovasculares, y que, por tanto, debería ofrecerse a los pacientes como la primera opción terapéutica. La embolización debería considerarse en aquellos pacientes con comorbilidad grave que contraindique una intervención quirúrgica.

Bibliografía

1. Ortega-Suero G, Porta Etessam J, Moreu Gamazo M, Rodríguez-Boto G. Fistulas arteriovenosas espinales del adulto. Manejo de una serie de casos desde una planta de Neurología. Neurologia. 2017, <http://dx.doi.org/10.1016/j.nrl.2016.12.001>.

2. Ruiz-Juretschke F, Perez-Calvo JM, Castro E, García-Leal R, Mateo-Sierra O, Fortea F, et al. A single center, long-term study of spinal dural arteriovenous fistulas with multidisciplinary treatment. *J Clin Neurosci.* 2011;18:1662–6.
 3. Prieto R, Pascual JM, Gutiérrez R, Santos E. Recovery from paraplegia after the treatment of spinal arteriovenous fistula: Case report and review of the literature. *Acta Neurochir (Wien).* 2009;151:1385–97.
 4. Iovtchev I, Hiller N, Ofran Y, Schwartz I, Cohen J, Rubin SA, et al. Late diagnosis of spinal dural arteriovenous fistulas resulting in severe lower-extremity weakness: A case series. *Spine J.* 2015;15:e39–44.
 5. Saladino A, Atkinson JL, Rabinstein AA, Piepgras DG, Marsh WR, Krauss WE, et al. Surgical treatment of spinal dural arteriovenous fistulae: A consecutive series of 154 patients. *Neurosurgery.* 2010;67:1350–8.
 6. Joswig H, Haji FA, Martinez-Perez R, Steven DA, Boulton MR. Rapid recovery from paraparesis in a patient with Foix-Alajouanine syndrome. *World Neurosurgery.* 2017;97:750.e1–3, <http://dx.doi.org/10.1016/j.wneu.2016.10.101>.
 7. Gokhale S, Khan SA, McDonagh DL, Britz G. Comparison of surgical and endovascular approach in management of spinal dural arteriovenous fistulas: A single center experience of 27 patients. *Surg Neurol Int.* 2014;5:7.
 8. Atkinson JL, Miller GM, Krauss ME, Marsch WR, Piepgras DG, Atkinson PP, et al. Clinical and radiographic features of dural arteriovenous fistula, a treatable cause of myelopathy. *Mayo Clin Proc.* 2001;76:1120–30.
 9. Song JK, Viñuela F, Gobin YP, Duckwiler GR, Murayama Y, Kureshi I, et al. Surgical and endovascular treatment of spinal dural arteriovenous fistulas: Long-term disability assessment and prognostic factors. *J Neurosurg.* 2001;94:199–201.
 10. Van Dijk JM, TerBrugge KG, Willinsky RA, Farb RI, Wallace C. Multidisciplinary management of spinal dural arteriovenous fistulas: Clinical presentation and long-term follow-up in 49 patients. *Stroke.* 2002;33:1578–83.
 11. Cenzato M, Versari P, Righi C, Simionato F, Casali C, Giovanelli M. Spinal dural arteriovenous fistulae: Analysis of outcome in relation to pretreatment indicators. *Neurosurgery.* 2004;55:815–23.
 12. Jellema K, Tijssen CC, van Rooij WJ, Sluzewski M, Koudstaal PJ, Algra A, et al. Spinal dural arteriovenous fistulas: Long-term follow-up of 44 treated patients. *Neurology.* 2004;62:1839–41.
 13. Steinmetz M, Chow MM, Krishnaney AA, Andrews-Hinders D, Benzel EC, Masaryk TJ, et al. Outcome after the treatment of spinal dural arteriovenous fistulae: A contemporary single-institution series and meta-analysis. *Neurosurgery.* 2004;55:77–88.
 14. Andres RH, Barth A, Guzman R, Remonda L, El-Koussy M, Seiler RW, et al. Endovascular and surgical treatment of spinal dural arteriovenous fistulas. *Neuroradiology.* 2008;50:869–76.
 15. Cecchi PC, Musumeci A, Faccioli F, Bricolo A. Surgical treatment of spinal dural arterio-venous fistulae: Long-term results and analysis of prognostic factors. *Acta Neurochir (Wien).* 2008;150:563–70.
 16. Narvid J, Hetts SW, Larsen D, Neuhaus J, Singh TP, McSwain H, et al. Spinal dural arteriovenous fistulae: Clinical features and long-term results. *Neurosurgery.* 2008;62:159–67.
 17. Park SB, Han MH, Jahng TA, Keon BJ, Chung CK. Spinal dural arteriovenous fistulas: Clinical experience with endovascular treatment as a primary therapeutic modality. *J Korean Neurosurg Soc.* 2008;44:364–9.
 18. Clark S, Powell G, Kandasamy J, Lee M, Nahser H, Pigott T. Spinal dural arteriovenous fistulas—Presentation, management and outcome in a single neurosurgical institution. *Br J Neurosurg.* 2013;27:465–70.
 19. Cho WS, Kim KJ, Kwon OK, Kim CH, Kim J, Han MH, et al. Clinical features and treatment outcomes of spinal arteriovenous fistulas and malformation: Clinical article. *J Neurosurg Spine.* 2013;19:207–16.
 20. Gemmette JJ, Chaudhary N, Elias AE, Toma AK, Pandey AS, Parker RA, et al. Spinal dural arteriovenous fistulas: Clinical experience with endovascular treatment as a primary therapy at 2 academic referral centers. *AJR Am J Neuroradiol.* 2013;34:1974–9.
 21. Kirsch M, Berg-Dammer E, Musahl C, Bäzner H, Kühne D, Henckes H. Endovascular management of spinal dural arteriovenous fistulas in 78 patients. *Neuroradiology.* 2013;55:337–43.
 22. Schuss P, Daher FH, Greschus S, Vatter H, Güresir E. Surgical treatment of spinal dural arteriovenous fistula: Management and long-term outcome in a single-center series. *World Neurosurg.* 2015;83:1002–5.
 23. Gross BA, Albuquerque FC, Moon K, McDougall CG. Validation of an 'endovascular-first' approach to spinal dural arteriovenous fistulas: An intention-to-treat analysis. *J Neurointerv Surg.* 2017;9:102–5.
 24. Koch MJ, Stapleton CJ, Agarwalla PK, Torok C, Shin JH, Coumans JV, et al. Open and endovascular treatment of spinal dural arteriovenous fistulas: A 10-year experience. *J Neurosurg Spine.* 2017;26:519–23.
- R. Prieto^{a,*}, J.M. Pascual^b
y L. Barrios^c
- ^a Servicio de Neurocirugía, Hospital Puerta de Hierro, Majadahonda, Madrid, España
- ^b Servicio de Neurocirugía, Hospital La Princesa, Madrid, España
- ^c Departamento de Estadística, Investigación Operativa y Estadística Aplicada, Consejo Superior de Investigaciones Científicas, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: rprieto29@hotmail.com (R. Prieto).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2017.07.023>

0213-4853/

© 2017 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).