



Sociedad Neurológica Argentina
Filial de la Federación Mundial
de Neurología

Neurología Argentina

www.elsevier.es/neurolarg



Casuística

Hemibalismo y hemicorea secundarios a un ataque cerebrovascular isquémico insular, una presentación inusual: reporte de caso



Carlos Martínez-Rubio^a, Hellen Kreinter-Rosenbaum^b y Habib Moutran-Barroso^{b,*}

^a Neurólogo, Fundación Santa Fe de Bogotá, profesor adscrito a la Universidad El Bosque y la Universidad de Los Andes, Bogotá, Colombia

^b Residente de Neurología, Fundación Santa Fe de Bogotá, Universidad El Bosque, Bogotá, Colombia

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 3 de noviembre de 2019

Aceptado el 5 de mayo de 2020

On-line el 15 de julio de 2020

Palabras clave:

Cerebrovascular

Hemibalismo

Hemicorea

Ínsula

R E S U M E N

Introducción: El síndrome hemicorea hemibalismo es una entidad clínica que se origina cuando hay una lesión en el núcleo subtalámico de Louis habitualmente. Las principales causas de este síndrome son por trastornos hiperglucémicos y la enfermedad cerebrovascular. En la casuística descrita se señala que existen otras regiones que pueden estar involucradas y ocasionar estos movimientos anormales, dadas por lesiones subcorticales, especialmente en los ganglios de la base. Sin embargo, al revisar la bibliografía, resulta muy infrecuente que estén involucradas estructuras corticales en la génesis de estos movimientos, lo que permite cuestionarse sobre el papel que tienen las redes o conexiones entre la corteza cerebral y los ganglios de la base en los movimientos involuntarios.

Caso clínico: El caso corresponde a una mujer de 93 años de edad quien inició con un síndrome hemicorea-hemibalismo por una enfermedad cerebrovascular isquémica aguda. Se documentó que la lesión isquémica estaba en la región insular derecha, tras ello, la paciente fue llevada a una trombólisis intravenosa con activador tisular del plasminógeno humano recombinante y tuvo una resolución de los síntomas. Posteriormente, durante su seguimiento, fue documentada una fibrilación auricular como agente etiológico.

Conclusión: Es el segundo caso reportado en la literatura de un síndrome hemicorea-hemibalismo causado por lesión insular. Resulta de mucho interés porque permite cuestionarse sobre las conexiones córtico-subcorticales relacionadas con la génesis de los trastornos de los movimientos, así como su fisiopatología.

No existen conflictos de interés por parte de los autores.

© 2020 Sociedad Neurológica Argentina. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: habib_gm_91@hotmail.com (H. Moutran-Barroso).

<https://doi.org/10.1016/j.neuarg.2020.05.004>

1853-0028/© 2020 Sociedad Neurológica Argentina. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Hemibalism and hemichorea secondary to an insular ischemic stroke, an unusual presentation: Case report

A B S T R A C T

Keywords:
Stroke
Hemibalism
Hemichorea
Insula

Introduction: The hemichorea-hemibalism syndrome is a clinical entity that originates when there is a lesion in the subthalamic nucleus of Louis usually. The main causes of this syndrome are due to hyperglycemic disorders and cerebrovascular disease. In the case studies described, there are other regions that may be involved and cause these abnormal movements, given by subcortical lesions, especially in the basal ganglia. However, when reviewing the literature, it is very uncommon for cortical structures to be involved in the genesis of these movements, which makes it possible to question the role of networks or connections between the cerebral cortex and the basal ganglia in involuntary movements.

Clinical case: The case corresponds to a 93-year-old woman who debuted with a hemichorea-hemibalism syndrome by an acute ischemic cerebrovascular disease. It was documented that the ischemic lesion was in the right insular region, after that, the patient was taken to an intravenous thrombolysis with Recombinant human tissue-type plasminogen activator and had a resolution of the symptoms. Subsequently, during follow-up, atrial fibrillation was documented as an etiologic agent.

Conclusion: It is the second case reported in the literature of a hemichorea-hemibalism syndrome caused by insular injury. It is of great interest because it allows one to ask about cortico-subcortical connections related to the genesis of movement disorders as well as their pathophysiology.

© 2020 Sociedad Neurológica Argentina. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

Los trastornos del movimiento se pueden clasificar en trastornos hipercinéticos y en hipocinéticos. Los trastornos hipercinéticos tienen la particularidad de ser movimientos involuntarios, excesivos y anormales, entre ellos figuran el balismo y la corea. Por otro lado, los trastornos hipocinéticos se manifiestan por la escasez o lentitud del movimiento. Estos trastornos, a su vez, pueden subdividirse etiológicamente en primarios, sin una causa atribuible o, secundarios, debido a múltiples etiologías¹.

Las secuelas derivadas de la enfermedad cerebrovascular representan hasta el 22% de todos los trastornos del movimiento secundarios² y los movimientos anormales se desarrollan como complicaciones residuales del 1 al 4% de todos los pacientes después de los accidentes cerebrovasculares^{2,3}, considerándose una manifestación clínica infrecuente. Los trastornos del movimiento secundarios a enfermedades cerebrovasculares tienen una presentación clínica característica, dado por el inicio súbito de los síntomas, que afectan a un hemisferio, pudiendo verse asociado a otros síntomas concomitantes³ e iniciar tempranamente o hasta meses o años posteriores al evento cerebrovascular⁴.

Al revisar la literatura, se observa una ausencia de ensayos relacionados con trastornos del movimiento por causa cerebrovascular ante la heterogeneidad y la rareza de los mismos. Además, es considerada inusual la descripción de una lesión insular como causal de este espectro sindrómico. Por ello, decidimos presentar el caso de una paciente de 93 años de edad, quien presentó un ataque cerebrovascular isquémico agudo con un síndrome hemichorea-hemibalismo por una lesión insular.

Caso clínico

Mujer de 93 años de edad, quien tiene como antecedentes una hipertensión arterial crónica primaria, enfermedad diverticular, enfermedad pulmonar obstructiva crónica, monorrenia congénita, desprendimiento de retina en el ojo derecho, cardiopatía hipertrófica y una enfermedad valvular múltiple. Ingresó por presentar un cuadro clínico de 30 min de evolución en el que una familiar la encontró en el suelo con una hemiparesia izquierda, una parálisis facial izquierda y disartria; tras ello, deciden trasladarla al servicio de urgencias. A su ingreso, tras su valoración inicial por neurología, la paciente tiene una resolución espontánea de los síntomas, con puntaje inicial de 0 en la escala NIHSS y la glucometría fue normal. Sin embargo, presentó durante su estancia temprana en urgencias movimientos anormales en el hemisferio izquierdo indicativos de un hemibalismo con hemichorea. Dado lo anterior, se decidió realizar una resonancia magnética de cerebro simple, pero durante la realización de la misma la paciente requirió manejo con haloperidol y midazolam para obtener modulación de los movimientos anormales y poder realizar la resonancia. El estudio evidencia un evento isquémico agudo en la ínsula derecha, sin signos de transformación hemorrágica y con trombosis de la arteria cerebral media derecha inmediatamente luego de su bifurcación en M2 (fig. 1).

A pesar de que la paciente tenía un puntaje de 0 en la escala NIHSS, se tuvo en consideración además la posibilidad del empeoramiento clínico dado el trombo en la arteria cerebral media derecha y la presencia de un hemibalismo-hemichorea como déficit discapacitante y se ofreció la oportunidad de recibir una trombólisis con activador tisular del plasminógeno humano recombinante. No fue considerada la posibilidad de

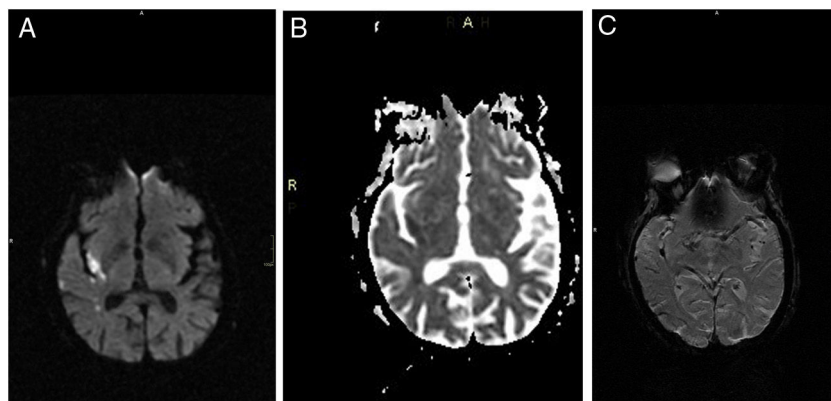


Figura 1 – Resonancia magnética de cerebro realizada al ingreso de la paciente, en secuencias DWI, ADC y SWI, respectivamente: a, b y c. En las imágenes a y b se observa un infarto agudo insular derecho. En la imagen c hay un trombo en la porción M2 de la cerebral media derecha.

un manejo endovascular sobre todo por la localización distal del trombo y el déficit relativamente leve en ese momento. Fue realizada la trombólisis por vía intravenosa y no hubo complicaciones durante la misma. Se trasladó a la paciente a la Unidad de Cuidado Intermedio para una monitorización y un seguimiento clínico.

Durante las primeras 24 h de observación clínica posteriores a la realización de la trombólisis intravenosa, la paciente tuvo mejoría del hemibalismo-hemicorea progresivamente hasta que desaparecieron por completo los movimientos. Se realizó una pesquisa neurovascular en la que no se evidenciaron anormalidades y una angiorresonancia 2 días después del ingreso de la paciente, en la que se identificó el infarto subagudo insular derecho, con cambios por leucoencefalopatía supratentorial inespecífica, asimetría en la vascularización de los lóbulos temporales con adecuada colateralización y no se visualizaron lesionesestenóticas significativas en la arteria cerebral media derecha.

En el seguimiento ambulatorio, se documenta una fibrilación auricular, por lo que se decidió iniciar anticoagulación con apixabán.

Discusión

La palabra «corea» deriva del latín *choreus*, que significa danza. La corea es un trastorno del movimiento hiperkinético que se caracteriza por movimientos rápidos, rotatorios con patrón irregular de las extremidades, el tronco, el cuello y la cabeza que constantemente cambian entre estas regiones sin un patrón definido. Los movimientos pueden ser unilaterales o bilaterales, aumentan con el estrés o la ansiedad y disminuyen durante el sueño, reposo o durante la realización de algún movimiento voluntario^{1,2}.

El balismo es descrito típicamente como movimientos involuntarios, incontrolables, incesantes y continuos, semejantes a arrojar algún objeto. Es característico que cada movimiento sea diferente, de gran amplitud y se diferencia de la corea o de la atetosis por ser de mayor amplitud que estos. El balismo afecta predominantemente a un hemicuerpo,

puede comprometer las extremidades, el tronco, la pelvis y, en algunos casos, la musculatura facial^{1,2}. Tradicionalmente, es reconocido que el hemibalismo se genera por una lesión en el núcleo subtalámico de Louis, pero este trastorno hiperkinético se ha descrito posteriormente en otras localizaciones, como una serie de casos radiológica de 22 pacientes con hemibalismo que reportó que el 27% de ellos tenía lesiones en otros sitios de los ganglios basales (p. ej., tálamo, putamen o globo pálido interno), pero no en el núcleo subtalámico, 3 de ellos (14%) tenían lesiones temporales, corticales o ambas y 7 (32%) tenían imágenes normales²⁻⁷.

Cabe destacar que dentro de la presentación clínica del balismo, es propio encontrar que los movimientos balísticos se vean acompañados de corea y atetosis (movimientos más lentos y poco estructurados), como parte del curso natural de la enfermedad de estos pacientes⁷. Estos movimientos se ven en la etapa aguda del ataque cerebrovascular y hay casos descritos en los que estos pacientes tienen una mejoría progresiva de los movimientos, en contexto de un síndrome lacunar hemibalismo-hemicorea. Asociada al hemibalismo, puede haber una hemiparesia, afasia u otro déficit dependiendo del compromiso topográfico del sistema nervioso central^{4,6}.

La principal causa del hemibalismo son los trastornos cerebrovasculares, seguido de los trastornos hiperglucémicos. La enfermedad cerebrovascular explica del 50 al 75% de estos casos, pero el hemibalismo solo representa, como síntoma, el 0,5% de las enfermedades cerebrovasculares^{1,2}. Dentro de las causas del hemibalismo de origen cerebrovascular, se incluyen principalmente los infartos lacunares y, en menor medida, las hemorragias, los ataques isquémicos transitorios, los cavernomas, los angiomas venosos, la enfermedad de moyamoya, las malformaciones arteriovenosas, entre otras⁵.

Ganglios basales e ínsula

Estudios en los que se ha utilizado la tractografía determinística de imágenes ponderadas por difusión de alta resolución angular (HARDI, por sus siglas en inglés), basada en

deconvolución esférica restringida y tractografía de filtro de partículas, se han descrito conexiones córtico-subcorticales de la ínsula con varias estructuras, como el tálamo, el putamen, el globo pálido y el caudado⁸⁻¹⁰.

Es una característica que el putamen participe en los procesos motores (p. ej., en la enfermedad de Parkinson). También se cree que el putamen está involucrado en el aprendizaje instrumental y en el procesamiento somatosensorial¹⁸. Existen conexiones funcionales entre el putamen caudal y las áreas motoras corticales primaria y suplementaria, congruentes con su función en la función motora, las conexiones entre el putamen rostral y la corteza prefrontal dorsolateral y la corteza cingulada anterior, asociadas con el control ejecutivo^{8,9}.

El globo pálido está involucrado en una variedad de funciones del habla, algunas de las que pueden estar íntimamente relacionadas con la ínsula. La ínsula anterior izquierda se ha relacionado con la producción del habla y el procesamiento articulatorio, el daño insular izquierdo después de las lesiones isquémicas puede provocar apraxia del habla y disartria. Además, que la ínsula anterior y media izquierda se han asociado con el procesamiento emocional y la función sensorio-motora, respectivamente, es posible que tal integración pueda ser permitida en parte por conexiones pálido-insulares^{11,12,14}.

La hemiparálisis y el hemibalismo comparten un vínculo fisiopatológico, por lo que el tratamiento de ambas condiciones es similar. El manejo médico depende en gran medida de la etiología, por ejemplo, cuando el causal es una crisis hiperglucémica la meta terapéutica en este grupo de pacientes va orientada a obtener un control glucémico.

La mayoría de los movimientos hiperkinéticos después de un ataque cerebrovascular tienen un curso autolimitado y resuelven entre los 6 a 12 meses⁴. Sin embargo, la corea y el balismo pueden llevar a un aumento en la morbilidad por lesiones y problemas en la coordinación, por ello, pueden necesitar tratamiento a corto plazo^{1,2}. El enfoque farmacológico va orientado hacia una terapia antidopaminérgica, a través del bloqueo de los receptores D2 debido a que la dopamina, al actuar sobre estos receptores, impide su efecto neto de carácter inhibitorio sobre la corteza motora⁴.

Dentro de los medicamentos, se destacan los neurolepticos de primera generación que tienen acción dopaminérgica, como lo son: haloperidol, pimozida, perfenazina y flufenazina¹⁻³; también neurolepticos de segunda generación como la olanzapina, quetiapina y la clozapina. Otras opciones incluyen el clonazepam, el valproato sódico y el topiramato^{1,2}.

En aquellos pacientes donde no haya una respuesta farmacológica satisfactoria, con disquinesias severas y persistentes, se plantea el uso de estimulación cerebral profunda o la terapia ablativa como segunda opción⁴. Los sitios usuales para la neuroestimulación son el tálamo a nivel del núcleo ventral-lateral y el globo pálido interno^{1,2}.

Conclusiones

Los síntomas que se relacionan a un hemibalismo o una hemiparálisis, en términos de frecuencia, están vinculados a ataques isquémicos transitorios o accidentes cerebrovasculares. No obstante, en el caso presentado, es inusual la asociación entre movimientos hemibalísticos-hemiparaléticos

con una lesión insular, que más comúnmente está relacionada con lesiones a nivel del núcleo subtalámico contralateral o en los ganglios de la base (p. ej., putamen, caudado, tálamo o en los globos pálidos)^{1,2}. Adicionalmente, el hemibalismo causado por daño a las estructuras corticales solo se ha descrito en un reporte de caso¹⁴. En nuestra experiencia, una lesión unilateral dentro del área insular provocó movimientos hemibalísticos transitorios, que generalmente se originan a partir de los ganglios de la base. Los datos neurofisiológicos obtenidos en estudios con animales sugieren que la inhibición excesiva del núcleo subtalámico por la desinhibición de las neuronas inhibitorias del segmento externo del globo pálido produce hemiparálisis-hemibalismo¹². Además, la estimulación cortical conduce a la excitación de las neuronas subtalámicas, pero en ocasiones se combina con una inhibición^{11,12,13}. La ínsula posterodorsal está especializada en la función auditiva, somestésica y motora, por lo que se puede indicar que la ínsula tiene un papel en la fisiopatología de los movimientos anormales¹⁴, como en el caso del hemibalismo-hemiparálisis^{10,11,13}. Esto podría ser explicado por una reducción de la función inhibitoria de la ínsula por isquemia cerebral hacia las neuronas subtalámicas^{10,15}.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

- Rodríguez M, Velázquez. Balismo y hemibalismo. En: Bernal O, editor. Movimientos hiperkinéticos: una aproximación diagnóstica y terapéutica. Colombia: Kimpres; 2016. p. 139-51.
- Mehanna R, Joseph J. Movement disorders in cerebrovascular disease. *The Lancet. Neurology*. 2013;12:597-608.
- Bansil S, Prakash N, Kaye J, Wrigley S, Manata C, Stevens-hass C, et al. Movement disorders after stroke in adults: A review. *Tremor and other hyperkinetic movements*. Pubmed. 2012;2:195-201.
- Nakawah M, Lai E. Post-stroke dyskinesias. *Neuropsychiatric disease and treatment*. 2016;12:2885-93.
- Bektas F. Hemichorea: A rare neurological deficit in the emergency department. *Emerg Med*. 2011;40:75-6. Web.
- De Betolaza S, Botta C, Marchissio E, Perendones M. Hemichorea vascular: Una presentación infrecuente del infarto lacunar. *Rev Urug Med Intern*. 2016;1:29-34.
- Do-Young K. Movement disorders following cerebrovascular lesions: Etiology. Treatment, options and prognosis. *J Mov Disord*. 2016;9:63-70.
- Ghaziri J, Tucholka A, Girard G, Boucher O, Houde J, Descoteaux M, et al. Subcortical structural connectivity of insular subregions. *Scientific Reports*. 2018;8:85-96.
- Hamani C, Saint-Cyr J, Fraser J, Kaplitt M, Lozano A. The subthalamic nucleus in the context of movement disorders. *Brain*. 2004;127:4-20.
- Laganiere S, Aaron B, Michael F. Network localization of hemichorea-hemiballismus. *Neurology*. 2016;86:2187-95.
- Manes L, Parkinson A, Larson C, Greenlee J, Eickhoff S, Corcos D, et al. Connectivity of the subthalamic nucleus and globus pallidus pars interna to regions within the speech network: A meta-analytic connectivity study. *Hum Brain Mapp*. 2014;35:3499-516.

-
12. Mesulam M, Mufson EJ. Insula of the old world monkey. III: Efferent cortical output and comments on function. *J Comp Neurol.* 1982;212:38–52.
 13. Liou LM, Yuh-Cherng G, Chiou-Lian L, Chin-Ling T, Gim-Thean K. Isolated ataxia after pure left insular cortex. *Neurol Sci.* 2010;31:89–91.
 14. Etgen T, Winbeck K, Conrad B, Sander D. Hemiballism with insular infarction as first manifestation of Takayasu's arteritis in association with chronic hepatitis B. *J Neurol.* 2003;250:226–9.
 15. Sunil K, Joshi J. Hemichorea —A rare presentation of acute stroke. *JIMSA.* 2008;21:1.