

Caso clínico

No toda inflamación orbital es celulitis: un caso clínico de una fistula carotídeo-cavernosa



Santiago Gómez-Jordan^{a,*}, Brenda C. Amell Baron^a, Maira A. Polo Trujillo^a, María J. Mercado Celin^a, José Rosales-Manjarres^b, Cristian Eduardo Navarro^{c,d} y Diego Viasus^e

^a Departamento de Medicina Interna, Universidad del Norte, Barranquilla, Colombia

^b Departamento de Neurología, Universidad del Norte y Hospital Universidad del Norte, Barranquilla, Colombia

^c Facultad de Medicina, Universidad de Antioquia, Medellín, Colombia

^d Grupo de Investigación E.S.E. Hospital Emiro Quintero Cañizares, Ocaña, Colombia

^e Departamento de Enfermedades Infecciosas, Universidad del Norte y Hospital Universidad del Norte, Barranquilla, Colombia

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 6 de mayo de 2024

Aceptado el 9 de agosto de 2024

On-line el 5 de septiembre de 2024

RESUMEN

Introducción: Una fistula carotídeo-cavernosa es una conexión anormal entre una rama de la arteria carótida y el seno cavernoso que puede provocar complicaciones oculares graves. Los signos y síntomas oftálmicos de la fistula carotídeo-cavernosa son inespecíficos, por lo que pueden surgir dificultades en el diagnóstico, ya que inicialmente puede identificarse erróneamente como una patología orbitalaria primaria.

Caso clínico: Varón sano de 39 años que desarrolló diplopía, lagrimeo ipsilateral y cefalea hemicraneal izquierda pulsátil. Cambios inflamatorios periorbitarios, diplopía y oftalmoplejía dolorosa sin alteración de la agudeza visual. Tras estudios paraclínicos donde se investigaron enfermedades infecciosas y no infecciosas, se identificó finalmente una fistula carotídeo-cavernosa. El paciente fue sometido a embolización endovascular transarterial, para su corrección. Logró recuperación completa de la movilidad ocular, con resolución del edema y del dolor.

Conclusiones: La fistula carotídeo-cavernosa es una entidad con múltiples formas de presentación, y se debe tener una alta sospecha clínica para su diagnóstico. Un diagnóstico oportuno y el tratamiento adecuado pueden llevar a una recuperación completa y prevenir complicaciones graves.

© 2024 Sociedad Neurológica Argentina. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Se reservan todos los derechos, incluidos los de minería de texto y datos, entrenamiento de IA y tecnologías similares.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: santiagogomezjordan@me.com (S. Gómez-Jordan).
<https://doi.org/10.1016/j.neuarg.2024.08.004>

1853-0028/© 2024 Sociedad Neurológica Argentina. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Se reservan todos los derechos, incluidos los de minería de texto y datos, entrenamiento de IA y tecnologías similares.

Not all unilateral-orbital inflammation is cellulitis: A clinical case of carotid-cavernous fistula

ABSTRACT

Keywords:

Carotid-cavernous fistula
Case reports
Diplopia
Painful ophthalmoplegia
Abducens nerve diseases
Differential diagnosis

Introduction: A carotid-cavernous fistula is an abnormal connection between a branch of the carotid artery and the cavernous sinus that can result in severe ocular complications. Ophthalmic signs and symptoms of carotid-cavernous fistula are unspecific, thus difficulties in diagnosis may arise since it can initially be misidentified as primary orbital pathology.

Clinical case: A healthy 39-year-old male who developed diplopia, ipsilateral lacrimation and a pulsating left hemi-cranial headache. Periorbital inflammatory changes, diplopia, and painful ophthalmoplegia without alteration of visual acuity. A thorough diagnostic and imaging process where infectious and non-infectious diseases were investigated, finally identifying a carotid-cavernous fistula. The patient underwent endovascular transarterial embolization, for correction of the carotid-cavernous fistula. He achieved complete recovery of ocular mobility, with edema and pain resolution.

Conclusions: Carotid-cavernous fistula is an entity with multiple forms of presentation, and a high clinical suspicion is necessary for its diagnosis. Timely diagnosis and appropriate treatment can lead to complete recovery and prevent serious complications.

© 2024 Sociedad Neurológica Argentina. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights are reserved, including those for text and data mining, AI training, and similar technologies.

Introducción

La fistula carotídeo-cavárnica (FCC) es una derivación anormal de la arteria carótida al seno cavernoso¹. La sintomatología de las FCC se debe principalmente a su impacto en estructuras vasculares y neurales cruciales dentro del seno cavernoso, incluidos los nervios craneales III, IV, V y VI^{1,2}. Como resultado, el comportamiento clínico de la afección puede parecerse tanto a causas infecciosas como a no infecciosas, lo que requiere un enfoque diagnóstico integral para descartar entidades clínicas más comunes. En este artículo presentamos el caso de un hombre joven con FCC que inicialmente fue difícil de diagnosticar; se adjuntan figuras que pueden ejemplificar claramente esta afección.

Informe de caso

Un hombre de 39 años se presentó al servicio de urgencias con cuadro clínico de cinco días de diplopía y cefalea intensa pulsátil hemicraneal izquierdo. El paciente también refirió lagrimo ipsilateral e inyección conjuntival. No tenía antecedentes médicos significativos y negó cualquier traumatismo reciente. En el examen físico presentó quemosis en el ojo izquierdo, edema periorbitario, calor al tacto, diplopía, proptosis y parálisis del VI nervio craneal izquierdo (fig. 1). La agudeza visual era de 20/20 en ambos ojos. Se observó papilitis en el ojo izquierdo, sin otras anomalías observadas en el examen de fondo de ojo, incluido el ojo derecho. No se midió la presión intraocular. Tampoco presentó otros hallazgos neurológicos. Los resultados de laboratorio al ingreso revelaron leucocitosis ($13,2 \times 10^9/l$), proteína C reactiva negativa, función renal, glucosa sérica y electrólitos normales.

Inicialmente se consideró que el paciente cursaba con una celulitis postseptal/orbitaria, por lo que se inició tratamiento antibiótico: ceftriaxona, vancomicina y metronidazol para cubrir gramnegativos, grampositivos y anaerobios. A pesar del tratamiento antibiótico, el estado del paciente empeoró, desarrollando parálisis de los nervios craneales III, IV y VI izquierdos, junto con aumento de la proptosis ocular. Se sospechó una trombosis cavernosa, por lo que se solicitó una angiografía por resonancia magnética cerebral (RMN) contrastada. El informe radiológico describió un «cambio inflamatorio compatible con celulitis preseptal», sin signos de trombosis después de la administración de contraste intravenoso (fig. 2). Estos hallazgos no explicaron la parálisis de los pares craneales ni la falta de respuesta a antibióticos de amplio espectro. La prueba de anticuerpos del virus de la inmunodeficiencia humana, las pruebas treponémicas y no treponémicas, los hemocultivos y la prueba de anticuerpos antinucleares fueron negativos. Se realizó punción lumbar, en la que se observó una presión de apertura elevada (45 cmH₂O) sin otras anomalías en el análisis del líquido cefalorraquídeo. Los resultados de los cultivos bacterianos, FilmArray® para meningitis/encefalitis y reacción en cadena de polimerasa para *Mycobacterium tuberculosis* fueron negativos, así como los niveles de la enzima convertidora de angiotensina en líquido cefalorraquídeo. Considerando que los resultados de las pruebas previas no mostraron una causa para las manifestaciones clínicas del paciente, se inició terapia con dexametasona intravenosa. Después de 48-72 horas, los signos y síntomas del paciente no mejoraron.

Al reevaluar nuevamente las imágenes de la angiografía cerebral se evidenció un agrandamiento de la vena oftálmica superior izquierda, lo que hizo sospechar una FCC (fig. 2). La arteriografía de los vasos intracraneales mostró un *blush* en el seno cavernoso izquierdo con arteria carótida interna ipsilate-



Figura 1 – Fotos frontales de movimientos oculares, preintervención. Parálisis de III, IV y VI pares craneales izquierdos.

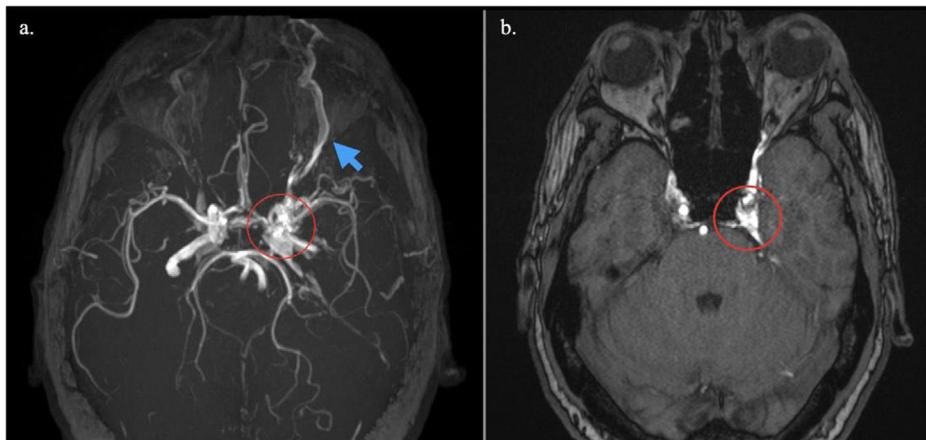


Figura 2 – Angiografía por resonancia magnética con contraste. A) Proyección de máxima intensidad que muestra pérdida de definición de la porción intracavernosa de la arteria carótida interna con agrandamiento de la vena oftálmica superior ipsilateral (flecha azul). B) Imagen ponderada en T1 que muestra asimetría de la luz de la porción cavernosa de la arteria carótida interna izquierda con extravasación de material de contraste paramagnético al seno cavernoso ipsilateral.



Figura 3 – Fotografías frontales de movimientos oculares, postintervención. Recuperación de movimientos del III y IV pares craneales izquierdos.

ral aferente, compatible con FCC de alto flujo, Barlow tipo I. El paciente fue sometido a embolización transarterial endovascular, con resolución de la proptosis, quemosis y reducción de la diplopía. Finalmente, el paciente logró una recuperación parcial del movimiento del ojo izquierdo después de un día (figs. 3 y 4).

Comentarios

Las FCC son típicamente secundarias a traumatismos, representando el 71% de los casos, mientras que el 27% son

espontáneas en una cohorte de 132 pacientes³. Sin embargo, un estudio posterior mostró una inversión de esta distribución, siendo el 81% de los 32 casos espontáneos⁴. Las FCC no traumáticas se observan con mayor frecuencia en mujeres, individuos de mediana a avanzada edad, y aproximadamente un tercio de los pacientes tienen diabetes o hipertensión⁴.

Las FCC pueden clasificarse en directas, generalmente de alto flujo, que resultan de una conexión entre la arteria carótida interna y el seno cavernoso, a menudo derivadas de un traumatismo o la rotura de una disección de la arteria carótida interna (ACI) o pseudoaneurisma dentro del seno cavernoso o



Figura 4 – Comparación lateral y frontal preintervención y postintervención. Presencia de ptosis, quemosis y edema conjuntival.

síndrome de Ehlers-Danlos⁵. Por otro lado, las FCC indirectas, y más comúnmente de bajo flujo, se originan a través de la comunicación que involucra las ramas meníngicas de la arteria cerebral anterior, la arteria comunicante anterior, la arteria carótida externa y el seno cavernoso, sin afectación de la ACI³. No pudimos determinar la causa de la FCC de los pacientes, y se consideró que se trataba de una FCC idiopática. Las manifestaciones clínicas de las FCC pueden variar según su tipo; las FCC indirectas son más insidiosas y pueden desarrollar proptosis, ojo rojo, glaucoma y diplopía⁴⁻⁷. Las FCC directas suelen presentarse con manifestaciones clínicas agudas, como cefalea frontal, sensación de cuerpo extraño ocular, entumecimiento facial, globo ocular pulsátil, quemosis, proptosis, soplo, visión borrosa, diplopía, arterialización de los vasos conjuntivales, exoftalmos, parálisis del tercer y sexto nervios, edema del disco del nervio óptico y estrabismo⁵⁻⁸. Teniendo en cuenta la naturaleza aguda del cuadro clínico y la angiografía por RMN del paciente, concluimos que nuestro paciente tiene una FCC directa idiopática porque no tenía ningún factor de riesgo conocido para desarrollar FCC. Aunque no presentó hallazgos físicos sugestivos de Ehlers-Danlos, no se realizó ninguna prueba genética.

Los diagnósticos diferenciales que deben considerarse al evaluar a pacientes con síntomas similares a la FCC abarcan varias afecciones, incluyendo inflamación conjuntival, infección, orbitopatía endocrina, hemorragia retrobulbar, orbi-

topatía maligna, oclusión/disección carotídea, síndrome de Tolosa-Hunt, pseudotumor orbitario, vasculitis, sarcoidosis y trombosis del seno cavernoso⁶. La mayoría de estas patologías fueron excluidas a través del estudio diagnóstico del paciente, pero deben ser notables las similitudes y las diferencias entre ellas. Los estudios de imagen juegan un papel crucial tanto en la exclusión de estas condiciones como en la posible indicación de la presencia de un diagnóstico de FCC. Los hallazgos de la ecografía pueden incluir una disminución de la velocidad del flujo en la arteria central de la retina en el lado afectado en comparación con el ojo no afectado⁶. La angiografía se destaca como el estándar de oro para el diagnóstico³. Típicamente revela venas tortuosas e ingurgitadas, aparición tardía de las venas y tinción focal, particularmente a lo largo de la región de reflujo venoso cortical en la fase venosa de la arteriografía vertebral o carótida interna⁹. Los abordajes terapéuticos para las FCC varían según su tipo: las FCC directas suelen requerir intervención endovascular, mientras que las FCC durales pueden resolverse espontáneamente, en particular en casos de bajo riesgo¹⁰.

El diagnóstico y el tratamiento de las FCC requieren un esfuerzo colaborativo entre medicina interna, radiología, neurología, oftalmología y neurocirugía⁶. El caso de nuestro paciente, marcado por la ausencia de antecedentes de trauma y la presentación clínica aguda, ejemplifica los desafíos que enfrentan los médicos al diagnosticar esta afección, especial-

mente porque los síntomas se superponen con los de otras entidades médicas.

Financiación

El presente trabajo no contó con fuentes de financiación.

Consideraciones éticas

Los autores declaran que los procedimientos se siguieron de acuerdo con las normas establecidas por el Comité de Investigación Clínica y Ética y con la Declaración de Helsinki de la Asociación Médica Mundial actualizada en 2013.

Consentimiento del paciente

Se obtuvo el consentimiento del paciente.

Confidencialidad de los datos

El proyecto se apega a la Resolución 8430 del 4 de octubre de 1993 de Colombia y contó con el consentimiento verbal y escrito del paciente para su publicación, así como con la aprobación del Comité de Investigación del Hospital.

Contribuciones de los autores

Todos los autores hacen contribuciones sustanciales a la concepción.

Todos los autores aprueban la versión final y todos aceptan ser responsables de todos los aspectos del trabajo para garantizar que las preguntas relacionadas con la precisión o integridad de cualquier parte del trabajo se investiguen y resuelvan adecuadamente.

SGJ, BCAB: diseño, concepción, adquisición de fotografías de pacientes y borrador.

MJMC, MAPT, CEN: análisis, adquisición de información y borrador.

DFV, JRM, CEN: interpretación de datos, análisis, revisión de contenido intelectual importante.

Conflictos de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses en la elaboración de este documento.

BIBLIOGRAFÍA

1. Kohli GS, Patel BC. Carotid cavernous fistula [actualizado 3 Abr 2023]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2023 <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK535409/>.
2. Cohen D, Sanchez F, Bhatti T, Lanzino G, Chen J. Evaluating the incidence and neuro-ophthalmic manifestations of carotid-cavernous fistulas. *J Neuroophthalmol*. 2024;44:232-5, <http://dx.doi.org/10.1097/wno.0000000000001973>.
3. Debrun G, Vinuela F, Fox A, Davis K, Ahn H. Indications for treatment and classification of 132 carotid-cavernous fistulas. *Neurosurgery*. 1988;22:285-9.
4. Oishi A, Miyamoto K, Yoshimura N. Etiology of carotid cavernous fistula in Japanese. *Jpn J Ophthalmol*. 2009;53:40-3, <http://dx.doi.org/10.1007/s10384-008-0611-1>.
5. Henderson A, Miller N. Carotid-cavernous fistula: Current concepts in aetiology, investigation, and management. *Eye*. 2018;32:164-72, <http://dx.doi.org/10.1038/eye.2017.240>.
6. Čmeleo J. Carotid-cavernous fistula from the perspective of an ophthalmologist. A review. *Cesk Slov Oftalmol*. 2020;1:1-8, <http://dx.doi.org/10.31348/2020/8>.
7. Barrow D, Spector R, Braun I, Landman J, Tindall S, Tindall G. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg*. 1985;62:248-56, <http://dx.doi.org/10.3171/jns.1985.62.2.0248>.
8. Miller N. Diagnosis and management of dural carotid-cavernous sinus fistulas. *Neurosurg Focus*. 2007;23:E14, <http://dx.doi.org/10.3171/FOC-07/11/E13>.
9. Sharma R, Ponder C, Kamran M, Chacko J, Kapoor N, Mylavarampu K, et al. Bilateral carotid-cavernous fistula: A diagnostic and therapeutic challenge. *J Investig Med High Impact Case Rep*. 2022;10, <http://dx.doi.org/10.1177/23247096221094181>, 23247096221094181.
10. Liang J, Xie X, Sun Y, Wei X, Li A. Bilateral carotid cavernous fistula after trauma: A case report and literature review. *Chin Neurosurg J*. 2021;7:46, <http://dx.doi.org/10.1186/s41016-021-00265-x>.