

fluctuaciones de la osmolalidad<sup>12</sup>, habitualmente el rápido aumento de la misma tras un estado crónico previo de baja osmolalidad. El caso presentado muestra una paciente previamente sometida a un mal control glucémico con hiperglucemias sostenidas que sufre una fluctuación brusca de la glucemia, con el consiguiente cambio rápido de una situación de hiperosmolalidad previa.

En conclusión, el caso clínico descrito confirma las fluctuaciones en la glucemia plasmática como una causa de mielinólisis pontina y extrapontina probablemente como consecuencia de un cambio brusco de la osmolalidad. Asimismo, apoya la hipótesis de las fluctuaciones rápidas de la osmolalidad como factor causal en la etiopatogenia de la mielinólisis pontina y extrapontina, independientemente del factor osmótico (sodio, glucosa), y sugiere la necesidad de evitar las correcciones bruscas de cualquier alteración metabólica que influya en la osmolalidad.

### Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

### Bibliografía

- Martin RJ. Central pontine and extrapontine myelinolysis: The osmotic demyelination syndromes. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2004;75(Suppl III):22–8.
- Dominguez RO, Laguarda N, Pinkala E, González SE. Potomania and osmotic imbalance: Permanent cortical visual impairment due to extrapontine myelinolysis. *Neurologia*. 2013;28:449–50.
- Kleinschmidt-Demasters BK, Rojiani AM, Filley CM. Central and extrapontine myelinolysis: Then... and now. *J Neuropathol Exp Neurol*. 2006;65:1–11.
- Hegazi MO, Mashankar A. Central pontine myelinolysis in the hyperosmolar hyperglycaemic state. *Med Clin Pract*. 2013;22:96–9.
- Guerrero WR, Dababneh H, Nadeau SE. Hemiparesis, encephalopathy, and extrapontine osmotic myelinolysis in the setting of hyperosmolar hyperglycemia. *J Clin Neurosci*. 2013;20:894–6.
- Sivaswamy L, Karia S. Extrapontine myelinolysis in a 4 year old with diabetic ketoacidosis. *Eur J Paediatr Neurol*. 2007;11:389–93.
- Onder H, Arsava EM, Gocmen R, Topcuoglu MA. Central pontine and extra-pontine myelinolysis after correction of severe hypoglycemia. *Neurol Sci*. 2013;34:2223–4.
- Burns JD, Kosa SC, Wijdicks EF. Central pontine myelinolysis in a patient with hyperosmolar hyperglycemia and consistently normal serum sodium. *Neurocrit Care*. 2009;11:251–4.
- Purucker E, Nguyen HN, Lammert F, Koch A, Matern S. Central pontine myelinolysis and myocardial infarction following severe hypoglycemia. *Intensive Care Med*. 2000;26:1406–7.
- Madey JJ, Hannah JA, Lazaridis C. Central pontine myelinolysis following acute hypoglycemia. *Clin Neurol Neurosurg*. 2013;115:2299–300.
- Guo Y, Miao YW, Ji XF, Li M, Liu X, Sun XP. Hemichorea associated with nonketotic hyperglycemia: Clinical and neuroimaging features in 12 patients. *Eur Neurol*. 2014;71:299–304.
- Murase T, Sugimura Y, Takefuji S, Oiso Y, Murata Y. Mechanisms and therapy of osmotic demyelination. *Am J Med*. 2006;119:S69–73.

J.A. Matías-Guiu<sup>a,\*</sup>, Á.M. Molino<sup>b</sup>, M. Jorquera<sup>c</sup>, R. Jiménez<sup>b</sup> y M. Ruiz-Yagüe<sup>b</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Neurología, Hospital Clínico San Carlos, Universidad Complutense, Madrid, España

<sup>b</sup> Servicio de Medicina Interna III, Hospital Clínico San Carlos, Universidad Complutense, Madrid, España

<sup>c</sup> Servicio de Diagnóstico por Imagen, Hospital Clínico San Carlos, Universidad Complutense, Madrid, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [jordimatasguiu@hotmail.com](mailto:jordimatasguiu@hotmail.com) (J.A. Matías-Guiu).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.nrl.2014.06.005>

## Oclusión basilar pediátrica tratada mediante trombectomía con stents extractores<sup>☆</sup>



### A paediatric case of basilar occlusion treated with mechanical thrombectomy using stent retrievers

El ictus pediátrico se define como aquel que ocurre en pacientes entre un mes y 18 años de edad<sup>1</sup>. La incidencia del ictus pediátrico es mucho menor que en el adulto, pero presenta una importante morbilidad (50% de secuelas neurológicas importantes o epilepsia, con la resultante carga socioeconómica que de ello se deriva)<sup>2</sup>, y mortalidad

(15-25%)<sup>3</sup>. Menos del 10% de los ictus en niños afectan a la circulación vertebro-basilar<sup>3</sup>. La forma de presentación más común de la oclusión basilar pediátrica es el deterioro del nivel de consciencia<sup>4</sup>, siendo la causa más común de síndrome de «locked-in» pediátrico<sup>5</sup>. Las múltiples presentaciones clínicas y la baja incidencia de esta afección suelen retrasar el diagnóstico en los niños<sup>3</sup>. Frecuentemente, la oclusión de la arteria basilar pediátrica es mal diagnosticada como migraña complicada o como epilepsia<sup>3</sup> y su etiología resulta desconocida en la mayoría de los casos<sup>3,4</sup>. No existe ningún tratamiento que haya demostrado su eficacia en esta patología en ensayos clínicos controlados aleatorizados en edad pediátrica, limitándose la poca experiencia existente a casos aislados o series de casos.

En general, en la práctica clínica, se considera criterio de exclusión para la trombólisis intravenosa o intraarterial una edad menor a 18 años<sup>6,7</sup>. Sin embargo, en los últimos años, los excelentes resultados de los dispositivos mecánicos en adultos<sup>8-10</sup> (extractores clásicos o modelos más evolucionados, como los stents extractores —stent-retrievers en

<sup>☆</sup> Efectivamente este trabajo fue aceptado para su presentación como póster en la LXV Reunión Anual de la Sociedad Española de Neurología, el día 22 de Noviembre de 2013.

la literatura anglosajona—) han abierto la posibilidad de extender estos tratamientos a otras indicaciones<sup>11,12</sup>. En este sentido, son relevantes los resultados de recientes estudios, como el IMS-III, el MR-Rescue o el Synthesis<sup>13-15</sup>, que si bien no consiguieron demostrar la superioridad de la trombectomía mecánica sobre «el mejor tratamiento médico», han sido criticados por diversos aspectos de su diseño, entre ellos, utilizar extractores clásicos (como el Merci) en lugar de stents extractores, que han demostrado claramente mayores tasas de recanalización.

Presentamos el caso de un paciente pediátrico con una oclusión basilar tratada de forma efectiva con stents extractores y una breve revisión de la literatura relacionada.

Un mes después de una miositis viral, consulta en urgencias un niño de 9 años de edad, con somnolencia rápidamente progresiva y vómitos. A la exploración neurológica se evidencia una disminución del nivel de consciencia, anartria, desviación de la mirada en skew y tetraparesia flácida asimétrica de predominio izquierdo, con reflejo cutáneo plantar extensor izquierdo y derecho indiferente. La puntuación en la escala NIHSS fue de 35 puntos. Las pruebas de laboratorio fueron normales. Se realizaron una TAC craneal urgente que mostró una pequeña lesión hipodensa subcortical occipital izquierda crónica, sin otros hallazgos significativos, y una punción lumbar que fue normal. Al día siguiente del ingreso, se realizó una RM cerebral, que mostró un aumento de señal en la luz de la arteria basilar en T2, y secuencias FLAIR, que evidenciaron la presencia de lesiones hiperintensas compatibles con lesiones isquémicas en la protuberancia y en la sustancia blanca de los lóbulos temporal y occipital. Estas lesiones mostraban diferentes intensidades en las secuencias de difusión al encontrarse en diferentes tiempos de evolución (fig. 1).

Ante estos hallazgos, se estableció la sospecha de una trombosis de la basilar y se solicitó una angio-TAC y TAC de perfusión urgentes, ya que por un problema técnico, las secuencias de angio-RM y perfusión no pudieron valorarse adecuadamente. Los estudios mediante TAC mostraron la existencia de una oclusión a nivel del tercio proximal de la arteria basilar y una extensa área de penumbra en ambos lóbulos occipitales y temporales. Ante la mala situación clínica del niño, se valoró la posibilidad de realizar una trombectomía mecánica. Treinta y seis horas después del inicio de los síntomas, se realizó una angiografía con sustracción digital por vía femoral, confirmándose la existencia de una oclusión en la arteria basilar proximal. Ante estos hallazgos, se procedió a realizar una trombectomía mecánica con un stent extractor (Solitaire 4-20, ev3, Irvine, California, EE. UU.), lográndose la apertura completa de la arteria basilar y todas sus ramas distales (fig. 2). El día posterior al procedimiento se realizó una TAC craneal de control en la que se evidenciaron un infarto pontino establecido y una ausencia de complicaciones hemorrágicas, iniciándose anticoagulación con heparina de bajo peso por la sospecha de un origen embólico subyacente. En los días sucesivos, el paciente comenzó a mejorar y se inició rehabilitación. El estudio etiológico del ictus resultó indeterminado, incluyendo estudio de trombofilia, vasculitis, serologías y ecocardiograma transtorácico y transesofágico. Dieciséis días después del inicio de los síntomas el paciente fue dado de alta, mostrando un nivel de consciencia normal, pares craneales normales, leve disartria, ligera dismetría

izquierda y hemiparesia espástica izquierda leve que le permitía mantener la elevación del brazo izquierdo durante más de 10 s con mínima claudicación distal, predominando la espasticidad (NIHSS 3).

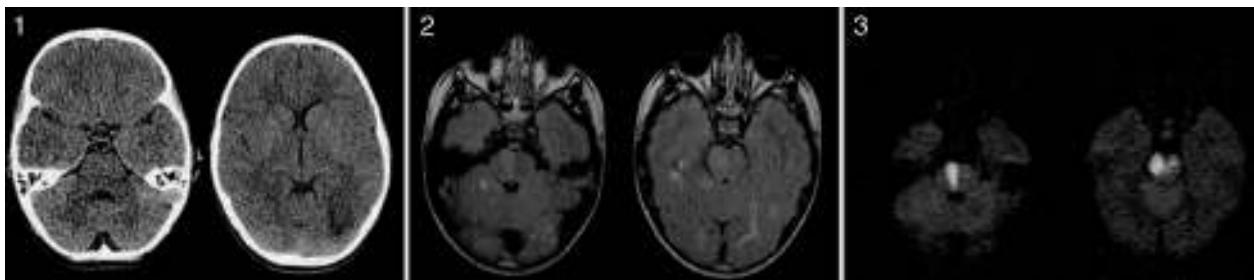
La trombosis basilar pediátrica es un cuadro clínico severo y con elevada morbimortalidad. No existen tratamientos que hayan demostrado eficacia y seguridad en ensayos clínicos aleatorizados, existiendo experiencia solo sobre la base de casos aislados o series de casos<sup>16</sup>. La trombólisis por vía intravenosa ha demostrado ser eficaz en algunos casos<sup>1,17</sup>, pero su utilización está limitada por la ventana terapéutica inferior a 3-4,5 h. La trombectomía mecánica presenta la ventaja de una mayor ventana de tratamiento y un teórico menor riesgo de sangrado, pero en el momento actual no hay ensayos clínicos o estudios clínicos que hayan demostrado su utilidad en el niño y su uso se sigue considerando experimental<sup>16</sup>.

En una reciente revisión sobre el tema<sup>16</sup>, los autores repasan los 63 casos publicados de trombosis basilar en niños. De los 45 pacientes que no recibieron tratamiento intravascular, 24 tuvieron una buena evolución (53%), mientras que de los 18 que fueron tratados 13 evolucionaron bien (72%). A pesar de esta aparente tendencia positiva, la interpretación de estos resultados es complicada, ya que bajo el término «tratamiento intravascular» se incluyen el tratamiento intraarterial con trombolíticos, la trombectomía mecánica y los tratamientos mixtos.

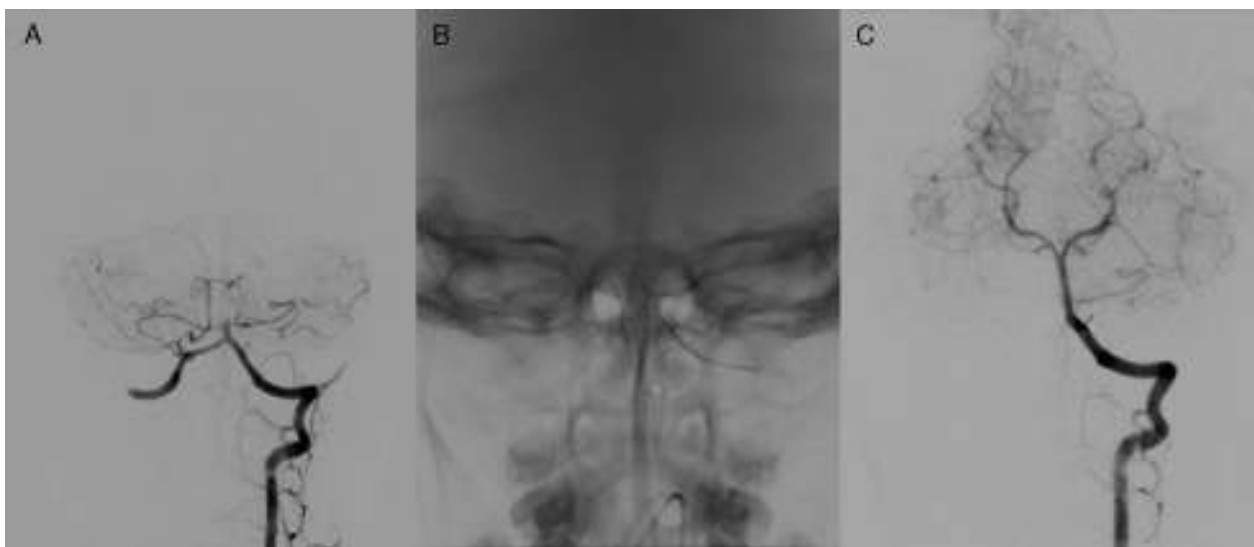
En el caso concreto de la trombectomía mecánica, se han publicado 9 casos de trombosis basilar tratados mediante diferentes dispositivos mecánicos y solo en 2 de ellos se utilizaron stents extractores<sup>11,12</sup>. Estos dispositivos consisten en unos stents autoexpandibles de 3 a 6 mm de largo, que se despliegan en el interior del trombo y lo adhieren, para posteriormente ser retirados con el trombo en su interior. En adultos, han demostrado ser más eficaces que los extractores clásicos<sup>18</sup>, probablemente gracias a su mayor superficie de contacto, pero en niños solo se han publicado los 2 casos comentados<sup>11,12</sup>.

Nuestro caso representa la primera publicación en España sobre este tema y viene a apoyar la trombectomía con estos dispositivos como una opción de tratamiento válida en la trombosis basilar del niño. Nuestro paciente es un varón de 9 años que presentó una evolución clínica muy positiva a la extracción del trombo con el stent extractor (NIHSS inicial 35, NIHSS al alta 3), a pesar del retraso diagnóstico, que determinó la imposibilidad de administrar la trombólisis por vía intravenosa y una clínica de 36 h de evolución previa a la realización de la trombectomía.

En nuestra opinión, las ventajas teóricas de la trombectomía con stents extractores en la trombosis basilar vienen dadas por varios factores, en especial la mayor ventana terapéutica que existe para territorio posterior (en la literatura se estima entre 24-48 h, en nuestro caso fue de 36 h), y la elevada rapidez y porcentajes de recanalización que ofrecen estos dispositivos, superior a la de los dispositivos clásicos<sup>18</sup>. Estos factores hacen que la trombectomía mecánica con stent-retrievers pueda ser valorada como una opción terapéutica en la trombosis basilar pediátrica en los casos en que otros tratamientos no sean eficaces o estén contraindicados, sin olvidar nunca que hasta ahora no hay estudios clínicos aleatorizados que hayan demostrado la eficacia de la trombectomía mecánica en niños ni en adultos.



**Figura 1** A) TC craneal simple urgente con protocolo de baja dosis que muestra pequeña lesión hipodensa subcortical occipital (adyacente al asta occipital del ventrículo lateral izquierdo), sin otros hallazgos significativos. B) Resonancia magnética cerebral; secuencia FLAIR axial en la que se observan lesiones hiperintensas compatibles con lesiones isquémicas en la protuberancia y en la sustancia blanca de los lóbulos temporal y occipital. C) secuencia axial potenciada en difusión b 1.000 que confirma la presencia de lesión isquémica aguda en la protuberancia, con marcada restricción de la difusión. Las lesiones occipital izquierda y temporal derecha no se muestran hiperintensas en la secuencia de difusión debido a su mayor tiempo de evolución.



**Figura 2** Angiografía por sustracción digital cerebral, proyecciones AP, inyección desde la arteria vertebral izquierda. A) Imagen previa al tratamiento en la que se confirma la oclusión de tercio medio de la arteria basilar. B) Imagen de procedimiento que muestra el dispositivo de extracción mecánica (stent extractor) abierto en el interior de la arteria basilar. C) Imagen de control final en la que se observan la apertura y la recuperación del calibre vascular de la arteria basilar y todas sus ramas distales.

## Bibliografía

1. Arnold M, Steinlin M, Baumann A, Nedeltchev K, Remonda L, Moser SJ, et al. Thrombolysis in childhood stroke. Report of 2 cases and review of the literature. *Stroke*. 2009;40:801–7.
2. De Veber G, MacGregor D, Curtis R, Mayank S. Neurologic outcome in survivors of childhood arterial ischemic stroke and sinovenous thrombosis. *J Child Neurol*. 2000;15:316–24.
3. Rosman NP, Adhami S, Mannheim GB, Katz NP, Klucznik RP, Muriello MA. Basilar artery occlusion in children: Misleading presentations, “locked-in” state, and diagnostic importance of accompanying vertebral artery occlusion. *J Child Neurol*. 2003;18:450–62.
4. Janmaat M, Gravendeel JP, Uyttenboogaart M, Vroomen PC, Brouwer OF, Luijckx GJ. Local intra-arterial thrombolysis in a 4-year-old male with vertebrobasilar thrombosis. *Dev Med Child Neurol*. 2009;51:155–8.
5. Bruno MA, Schnakers C, Damas F, Pellas F, Lutte I, Bernheim J, et al. Locked-in syndrome in children. Report of five cases and review of the literature. *Pediatr Neurol*. 2009;41:237–46.
6. Furlan A, Higashida R, Wechsler L, Gent M, Rowley H, Kase C, et al. Intra-arterial prourokinase for acute ischemic stroke. The PROACT II Study: A randomized controlled trial. Prollyse in acute cerebral thromboembolism. *JAMA*. 1999;282:2003–11.
7. Belvis R. Thrombolysis for acute stroke in pediatrics. *Stroke*. 2007;38:1722–3.
8. Mordasini P, Brekenfeld C, Byrne JV, Fischer U, Arnold M, Heldner MR, et al. Technical feasibility and application of mechanical thrombectomy with the Solitaire FR Revascularization Device in acute basilar artery occlusion. *AJNR*. 2013;1:159–63.
9. Andersson T, Kuntze Söderqvist A, Söderman M, Holmin S, Wahlgren N, Kaijser M. Mechanical thrombectomy as the primary treatment for acute basilar artery occlusion: Experience from 5 years of practice. *J Neurointerv Surg*. 2013;3:221–5.
10. Espinosa de Rueda M, Parrilla G, Zamorro J, García-Villalba B, Hernández F, Moreno A. Treatment of acute vertebrobasilar occlusion using thrombectomy with stent retrievers: Initial experience with 18 patients. *AJNR*. 2013;34:1044–8.

11. Taneja SR, Hanna I, Holdgate A, Wenderoth J, Cordato DJ. Basilar artery occlusion in a 14-year-old female successfully treated with acute intravascular intervention: Case report and review of the literature. *J Paediatr Child Health*. 2011;47:408–14.
  12. Fink J, Sonnenborg L, Larsen LL, Born AP, Holtmannspötter M, Kondziella D. Basilar artery thrombosis in a child treated with intravenous tissue plasminogen activator and endovascular mechanical thrombectomy. *J Child Neurol*. 2013;28:1521-6.
  13. Broderick JP<sup>1</sup>, Palesch YY, Demchuk AM, Yeatts SD, Khatri P, Hill MD, et al., Interventional Management of Stroke (IMS) III Investigators. Endovascular therapy after intravenous t-PA versus t-PA alone for stroke. *N Engl J Med*. 2013;368:893–903.
  14. Ciccone A, Valvassori L, Nichelatti M, Sgoifo A, Ponzio M, Sterzi R, et al. Endovascular treatment for acute ischemic stroke. *N Engl J Med*. 2013;368:904–13.
  15. Kidwell CS, Jahan R, Gornbein J, Alger JR, Nenov V, Ajani Z, et al. A trial of imaging selection and endovascular treatment for ischemic stroke. *N Engl J Med*. 2014;29:633–45.
  16. Chikkannaiah M, Lo WD. Childhood basilar artery occlusion: A report of 5 cases and review of the literature. *J Child Neurol*. 2013 May 13 [Epub ahead of print].
  17. Tanaka K, Uehara T, Sato K, Amano T, Minematsu K, Toyoda K. Successful intravenous rt-PA thrombolysis for a childhood cardioembolic stroke with Emery-Dreifuss muscular dystrophy. *Cerebrovasc Dis*. 2012;33:92–3.
  18. Saver JL, Jahan R, Levy EI, Jovin TG, Baxter B, Nogueira RG, et al. Solitaire flow restoration device versus the Merci Retriever in patients with acute ischaemic stroke (SWIFT): A randomised, parallel-group, non-inferiority trial. *Lancet*. 2012;6:1241–9.
- C.M. Garnés Sánchez<sup>a,\*</sup>, G. Parrilla<sup>b</sup>, B. García Villalba<sup>b</sup>, H. Alarcón Martínez<sup>c</sup>, E. Martínez Salcedo<sup>c</sup> y S. Reyes Domínguez<sup>d</sup>
- <sup>a</sup> Servicio de Neurología, Hospital Universitario Santa Lucía, Santa Lucía, Cartagena, Murcia, España  
<sup>b</sup> Servicio de Neurorradiología Intervencionista, Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca, El Palmar, Murcia, España  
<sup>c</sup> Sección de Neuropediatría, Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca, El Palmar, Murcia, España  
<sup>d</sup> Sección UCI pediátrica, Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca, El Palmar, Murcia, España
- \* Autor para correspondencia.  
 Correo electrónico: [cmgarnes@hotmail.com](mailto:cmgarnes@hotmail.com)  
 (C.M. Garnés Sánchez).
- <http://dx.doi.org/10.1016/j.nrl.2014.05.003>

## Primer caso descrito de coma desencadenado por embolismo aéreo venoso retrógrado: una situación excepcional pero potencialmente letal



### First described case of coma triggered by retrograde venous air embolism: an exceptional but potentially life-threatening situation

*Sr. Editor:*

El embolismo venoso aéreo retrógrado (EAVR) se produce cuando un gradiente de presión subatmosférico permite el paso de aire al sistema venoso, avanzando en dirección opuesta a la del flujo sanguíneo venoso normal, pudiendo alcanzar en última instancia la circulación venosa intracraneal. Su etiología incluye intervenciones quirúrgicas, neumobarotraumas y maniobras invasivas, como la instrumentación de una vía venosa, por lo general central e inusualmente de vía venosa periférica (VVP). Se trata de una afección infradiagnosticada, con una prevalencia e incidencia indeterminadas, dado que sólo existen casos anecdóticos comunicados<sup>1-7</sup>. Los hallazgos neurológicos incluyen: confusión, amnesia, crisis epilépticas, vasculopatía cerebral isquémica y/o coma. La TAC craneal y el oxígeno suministrado en concentraciones próximas al 100% resultan cruciales para su diagnóstico y tratamiento<sup>7-9</sup>. Presentamos un caso inédito de una paciente que entró abruptamente en coma, tras generarse un EAVR por desconexión accidental de una VVP.

Se trataba de una mujer de 79 años sin antecedentes de interés que, estando ingresada por una celulitis de miembros inferiores, sufrió al incorporarse de la cama un cuadro brusco hipotensivo, precedido de la extracción fortuita de la VVP, consistente en taquipnea y posteriormente bajo nivel de consciencia. En la exploración, la paciente presentaba un lenguaje ininteligible e inapertura ocular y ausencia de retirada a la estimulación nociceptiva (escala de coma de Glasgow de 4: O1/V2/M1), así como un enfisema subcutáneo antebraquial. Fue ingresada en la Unidad de Cuidados Intensivos, donde se administraron sueros y oxígeno a alto flujo (15 lpm) mediante ventimask con reservorio. En la analítica destacaba una acidosis respiratoria, con elevación transitoria de biomarcadores de necrosis miocárdica y dímero D en rango normal. El ECG mostró datos de sobrecarga aguda ventricular derecha e hipertensión pulmonar (HTP) (fig. 1), mientras que la radiografía torácica desveló signos incipientes de insuficiencia cardíaca. La TAC craneal reveló burbujas aéreas en ambos senos cavernosos (fig. 2A) y en la fosa infratemporal izquierda (fig. 2B). Tras descartar etiología tóxica, metabólica e infecciosa, se completó el estudio a las 24-48 h mediante realización de: angio-TAC helicoidal torácica (descartando tromboembolismo pulmonar), ecocardiograma transesofágico (excluyendo comunicación interauricular) (fig. 3), cateterismo cardíaco derecho (obteniendo una presión media arterial pulmonar de 46 mmHg, equivalente a HTP moderada) y resonancia magnética craneal (visualizando leucoaraisis y atrofia corticostriatal edad dependiente). La paciente fue diagnosticada de coma secundario a shock cardiogénico precipitado por EAVR. Su evolución fue favorable, con excelente respuesta terapéutica a la oxigenoterapia y sueroterapia, consiguiéndose la restitución *ad integrum* a los 3 meses.