

Monoterapia con resección microquirúrgica de la ruptura de la malformación arteriovenosa grado III+ de Spetzler-Martin: reporte de un caso

Monotherapy with microsurgical resection of ruptured Spetzler-Martin grade III+ arteriovenous malformation: a case report

Richard Febres-Ramos^{1,2} , Ricardo Rojas-Dueñas¹ , Edwin Huerto-Jara¹ , Juan Basilio-Flores^{1,2} 

¹ Unidad de Neurocirugía Hospital de Emergencias Villa El Salvador, Lima, Perú.

² Escuela de Medicina, Universidad Nacional Mayor de San Marcos, Lima, Perú.

Recibido: 15 de abril 2024

Aprobado: 22 de junio 2024

Contribución de los autores

RJFR: Concepción y diseño, análisis e interpretación de datos, aprobación de la versión final. RMRD: Revisión crítica del artículo, adquisición de datos, aprobación de la versión final. EHJ: Revisión crítica del artículo, análisis e interpretación de datos aprobación de la versión final. JEBF: Concepción y diseño, revisión crítica del artículo, revisión de la versión remitida a los autores aprobación de la versión final.

Conflictos de interés

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Fuentes de financiamiento

Autofinanciado.

Citar como

Febres-Ramos R, Rojas-Dueñas R, Huerto-Jara E, Basilio-Flores J. Monoterapia con resección microquirúrgica de la ruptura de la malformación arteriovenosa grado III+ de Spetzler-Martin: reporte de un caso, 2024. Rev Med Rebagliati. 2024;4(2):67-71. doi: 10.70106/rmr.v4i2.29

Correspondencia

Richard J Febres-Ramos
Dirección: Unidad de Neurocirugía, Hospital de Emergencias Villa El Salvador, Calle Millas 200, Lima, Perú.
E-mail: richardfr.94@gmail.com

RESUMEN

Introducción: Las lesiones de grado III+ de Spetzler-Martin han mostrado un alto riesgo quirúrgico, por lo que se puede considerar un manejo conservador. Sin embargo, la ruptura de la presentación en pacientes pediátricos justifica la intervención. Se reporta un caso de tratamiento exitoso con resección quirúrgica. **Descripción del caso:** Paciente masculino de 4 años de edad que acudió al servicio de urgencias en estado comatoso por hemorragia intracraneal con extensión ventricular. Tras el manejo de urgencia con drenaje ventricular, el estudio angiográfico reveló una malformación arteriovenosa precentral grado III+ rota con aneurismas intranidales. La resección microquirúrgica con angiografía por sustracción digital intraoperatoria se realizó con éxito sin cambios en el estado neurológico. **Conclusión:** Se justifica el manejo individualizado de las malformaciones arteriovenosas grado III. Cuando se analizan varias características clínicas y angiográficas, se pueden proponer mejores enfoques de tratamiento. Algunas lesiones de grado III+ son adecuadas para el manejo en monoterapia con resección quirúrgica.

Palabras clave: malformaciones arteriovenosas intracraneales, angiografía por sustracción digital, reporte de casos (fuente: DeCS-Bireme).

ABSTRACT

Introduction: Spetzler-Martin grade III+ lesions have shown high surgical risk; therefore, conservative management can be considered. However, ruptured presentation in pediatric patients warrants intervention. A case of successful treatment with surgical resection is reported. **Case description:** A 4-year-old male patient presented to the emergency room with comatose state due to intracranial bleeding with ventricular extension. After emergency management with ventricular drainage, angiographic study revealed a ruptured precentral grade III+ arteriovenous malformation with intranidal aneurysms. Microsurgical resection with intraoperative digital subtraction angiography was successfully performed without change in neurological status. **Conclusion:** Individualized management of grade III arteriovenous malformations is warranted. When several clinical and angiographic features are analyzed, better treatment approaches can be proposed. Some grade III+ lesions are suitable for monotherapy management with surgical resection.

Keywords: intracranial arteriovenous malformations, digital subtraction angiography, case reports (source: MeSH NLM).

INTRODUCCIÓN

Las malformaciones arteriovenosas cerebrales (MAV) son lesiones heterogéneas que requieren estrategias de tratamiento personalizadas. La clasificación de Spetzler-Martin es el sistema de calificación más común utilizado en toda la literatura⁽¹⁾. Las malformaciones arteriovenosas de grado III de Spetzler-Martin se consideran lesiones de grado intermedio, que por lo general requieren tratamiento con terapia multimodal⁽²⁾. Este subgrupo también ha mostrado una notable heterogeneidad, lo que llevó a la propuesta de sistemas de subclasificación^(3,4). Las malformaciones arteriovenosas

de grado III+ de Spetzler-Martin han mostrado un riesgo quirúrgico similar al de las malformaciones arteriovenosas de grado alto y se ha propuesto un tratamiento conservador ⁽⁴⁾. Sin embargo, el cuadro clínico inicial con hemorragia justifica el tratamiento de estos casos. Presentamos un caso pediátrico de malformación arteriovenosa de grado III+ de Spetzler-Martin rota tratada con éxito con monoterapia mediante resección microquirúrgica. Este caso nos permite poner de manifiesto la necesidad de abordajes individualizados de los casos de malformación arteriovenosa, teniendo en cuenta las características favorables y desfavorables para alcanzar la mejor estrategia de tratamiento.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Admisión actual

Un niño de 4 años fue llevado a la sala de emergencias con antecedentes de pérdida repentina de conciencia seguida de convulsiones tónico-clónicas braquiales focales. La tomografía computarizada (TC) craneal

inicial reveló un hematoma intracraneal fronto-parietal cortico-subcortical izquierdo extendido al espacio ventricular (Figura 1). Al ingreso, el paciente se encontraba en estado de coma, con una escala de coma de Glasgow de 8 puntos y anisocoria con midriasis izquierda. Ante la sospecha de una malformación arteriovenosa subyacente, la hipertensión intracraneal se manejó con un drenaje ventricular externo, que posteriormente fue sustituido por una derivación ventrículo-peritoneal. Después de la recuperación del nivel de conciencia, el paciente presentó afasia y hemiparesia derecha severa. Se realizó una angiografía por TAC que reveló una malformación arteriovenosa frontal medial localizada en la circunvolución precentral (Figura 1).

Administración

Dada la presentación rota, la edad joven, el déficit neurológico ya establecido y las características angiográficas de la lesión, incluyendo pequeño volumen a pesar del diámetro máximo intermedio, aferente arterial principal único y drenaje venoso superficial, se

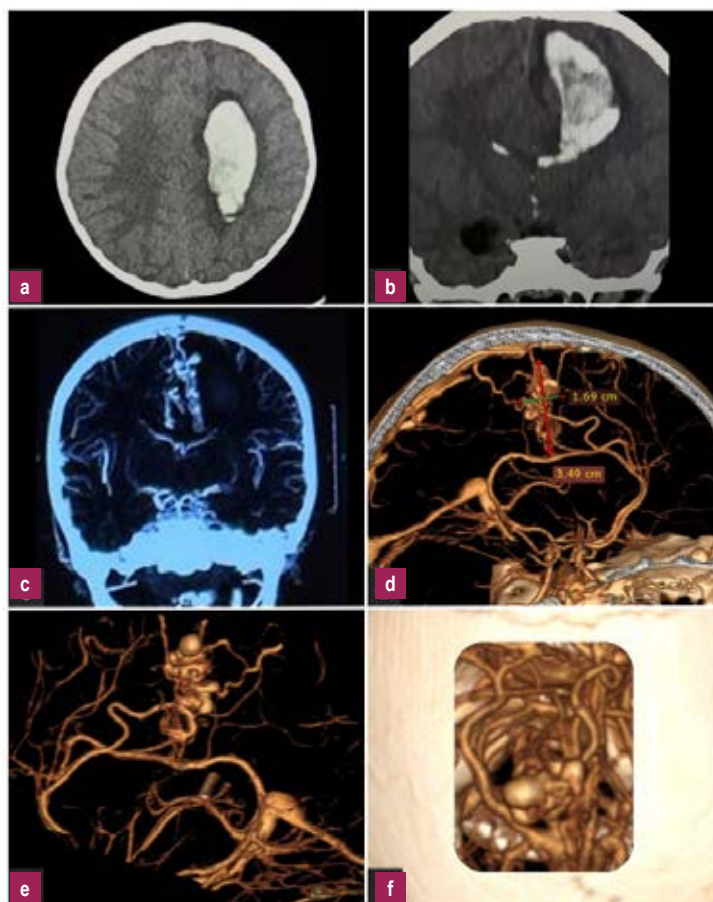


Figura 1: La TC cerebral mostró un hematoma intracraneal fronto-parietal (a) con extensión ventricular (b). La angioTC evidenció una malformación arteriovenosa precentral de Spetzler-Martin III+ (T2E1D0) con nido compacto medial al hematoma (c), con diámetros de 3,5x1,7x1,0 cm y volumen estimado de 3 ml, con un único aferente (diámetro de 1,9 mm) de ACAd y 3 venas de drenaje superficiales al seno sagital superior (d). Se observaron varios aneurismas intranidales (e). En (f) se muestra una reconstrucción 3D de la vista intraoperatoria a través de una craneotomía parasagital parietal.

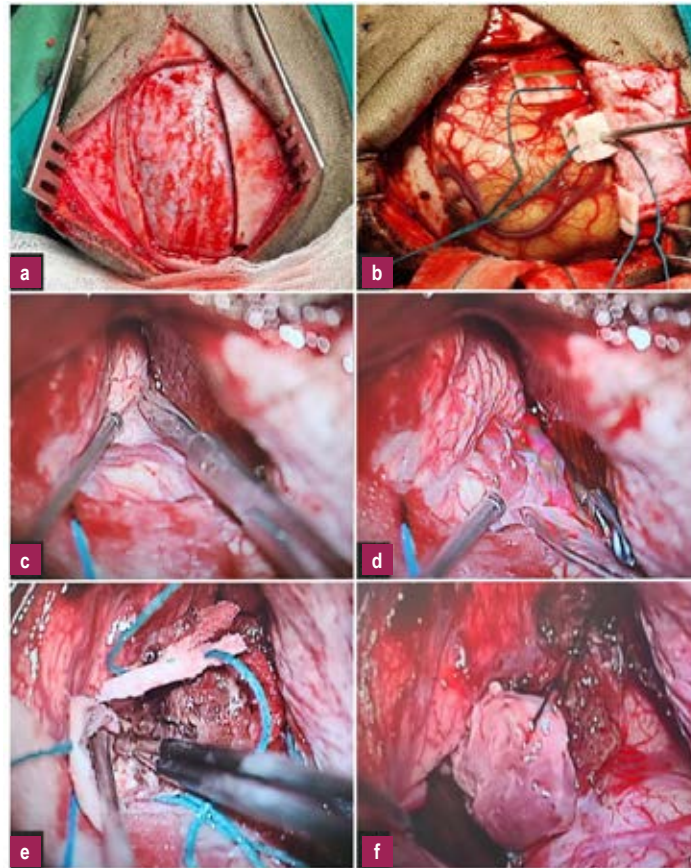


Figura 2: Resección quirúrgica de la MAV cerebral. Se realizó craneotomía parietal parasagital (a). Después de la apertura dural (b), se realizó disección interhemisférica (c) hasta la identificación de la aferente arterial, que se recortó cerca del nido (d). La circundisección se realizó desde la superficie medial (e), llegando a la cavidad del hematoma (f) lo que permitió completar la resección.

indicó manejo con monoterapia basada en resección microquirúrgica con angiografía por sustracción digital intraoperatoria.

Con el paciente bajo anestesia general, en posición neutra con el cuello flexionado, se realizó una craneotomía parietal parasagital izquierda (Figura 2). Después de

la apertura dural, se realizó disección interhemisférica hasta la identificación de la ramificación de la aferente arterial de la arteria cerebral anterior distal (ACAd) izquierda. Se utilizó el acceso femoral para el cateterismo cerebral y se obtuvo una angiografía por sustracción digital de la arteria cerebral interna izquierda (ACI) (Figura 3). Se aplicó clipaje transitorio de



Figura 3: La angiografía intraoperatoria mostró el nido de la MAV cerebral y alimentado por una sola rama arterial (a), que se realizó clipaje (b), lo que resultó en una obliteración angiográfica completa del nido (c).

la aferente arterial principal y se obtuvo una angiografía control, que mostró obliteración del nido de la MAV, confirmando que la arteria frontal posterior era la única aferente arterial angiográficamente visible. Primero se realizó circundisección desde la superficie medial, hasta el encuentro con la cavidad del hematoma. Tras el drenaje del hematoma y la cauterización de los aneurismas intranidales, se completó la resección del nido (Figura 2). La angiografía de control final confirmó la resección total.

RESULTADO

La evolución postoperatoria fue favorable, sin complicaciones perioperatorias. No se observaron cambios en los déficits neurológicos hasta el alta.

DISCUSIÓN

La clasificación de Spetzler-Martin es el esquema de clasificación más utilizado y validado para los resultados quirúrgicos del tratamiento de la MAV cerebral ⁽¹⁾. El tratamiento de la malformación arteriovenosa de Spetzler-Martin III debe ser individualizado y, por lo general, requiere un enfoque multimodal, que refleje la complejidad y heterogeneidad de esta clase ⁽²⁾. La clasificación modificada de la malformación arteriovenosa de grado III propuesta por Lawton ⁽⁴⁾ estableció 4 subtipos con estrategias de tratamiento y resultados potencialmente diferentes. Entre estas, la tasa más alta de complicaciones quirúrgicas se observó para la malformación arteriovenosa grado III+, que corresponde a lesiones de 3-6 cm (T2) en localización elocuente (E1) con drenaje venoso superficial (DO) ⁽⁴⁾. Esta tasa más alta de complicaciones se ha corroborado en varias series, con tasas de 15-25 % con abordajes quirúrgicos ⁽⁵⁾ y multimodales ^(6,7) y una tasa de obliteración del 85% ⁽⁷⁾. Aunque las series multimodales más recientes encontraron tasas de complicaciones apenas similares entre estos subtipos ⁽⁸⁾. Dado que se ha notificado un riesgo quirúrgico de malformación arteriovenosa de grado III en general con tasas de 6-18% ⁽⁷⁾ se puede considerar el tratamiento conservador de las lesiones de grado III+. Sin embargo, nuestro caso reportado ameritó tratamiento dado que la presentación rota ya había causado la posible complicación neurológica después del tratamiento, y se observaron varias otras características que favorecían la intervención. Por un lado, se consideró que el riesgo de resangrado aumentaba con la edad temprana ⁽⁹⁾ y los aneurismas asociados intranidales ⁽¹⁰⁾. Por otro lado, las características angiográficas, como la aferente arterial único ⁽¹¹⁾ y el nido compacto ⁽¹²⁾ se relacionan con un riesgo quirúrgico bajo. Aunque la lesión era de tamaño mediano según su diámetro máximo, se observó que su volumen era pequeño. En conjunto, estas características favorecen el tratamiento quirúrgico de la malformación arteriovenosa de grado III ⁽¹³⁾. Además, se ha sugerido

el uso del sistema de clasificación de Spetzler-Martin suplementario para una mejor estratificación de las lesiones de grado III ⁽⁸⁾. De acuerdo con esta clasificación, nuestro caso fue calificado como 4 (T2E1D0 A1B0C0), lo que implica un riesgo quirúrgico bajo. Cabe destacar que el abordaje multimodal preferido en las series notificadas fue la embolización seguida de cirugía ⁽⁶⁾. Se ha observado que la embolización endovascular es beneficiosa para la malformación arteriovenosa de grado III cuando se usa como preoperatorio ⁽¹⁴⁾ en lugar de monoterapia ⁽¹⁵⁾. A pesar de que este caso presentaba características favorables para la obliteración por embolización, como nido compacto, presentación rota y ≤ 3 aferentes ⁽¹⁶⁾ se optó por el tratamiento microquirúrgico como tratamiento de primera línea dada la edad muy temprana y el fácil control esperado de la aferente arterial al principio del procedimiento quirúrgico con la ayuda de la angiografía intraoperatoria que sirvió también como control postoperatorio. La angiografía por sustracción digital intraoperatoria es ventajosa sobre la angiografía con verde de indocianina, especialmente para lesiones con extensiones profundas ⁽¹⁷⁾. Se observan restos intraoperatorios en 11-22% de las resecciones quirúrgicas en población pediátrica ^(18,19) que solamente se detectan en la angiografía intraoperatoria un 3% ⁽¹⁷⁾. La tasa de recidiva en los tratados con cirugía es del 9.5% ⁽²⁰⁾ comparado con la del 15,9 % cuando se consideran otras modalidades de tratamiento ⁽²¹⁾. Por lo tanto, este caso pediátrico amerita un seguimiento a largo plazo, incluso con su angiografía postoperatoria negativa.

Conclusión

Las malformaciones arteriovenosas de grado III de Spetzler-Martin son lesiones heterogéneas que requieren un tratamiento individualizado. Aunque generalmente se recomienda la terapia multimodal, las estrategias de monoterapia se pueden llevar a cabo con éxito. Se requiere el análisis de varias características clínicas y angiográficas para establecer el mejor enfoque de tratamiento. Algunas lesiones de grado III+ son adecuadas para el manejo en monoterapia con resección quirúrgica.

Agradecimientos

Al equipo de trabajo de la Unidad de neurocirugía del Hospital Emergencias Villa El Salvador.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Tayebi Meybodi A, Lawton MT. Modern classification and outcome predictors of surgery in patients with brain arteriovenous malformations. *J Neurosurg Sci.* agosto de 2018;62(4):454-66.
2. Spetzler RF, Ponce FA. A 3-tier classification of cerebral arteriovenous malformations. *Clinical article. J Neurosurg.* marzo de 2011;114(3):842-9.
3. de Oliveira E, Tedeschi H, Raso J. Comprehensive management of arteriovenous malformations. *Neurol Res.* diciembre de 1998;20(8):673-83.

4. Lawton MT, UCSF Brain Arteriovenous Malformation Study Project. Spetzler-Martin Grade III arteriovenous malformations: surgical results and a modification of the grading scale. *Neurosurgery*. abril de 2003;52(4):740-8; discussion 748-749.
5. Davidson AS, Morgan MK. How safe is arteriovenous malformation surgery? A prospective, observational study of surgery as first-line treatment for brain arteriovenous malformations. *Neurosurgery*. marzo de 2010;66(3):498-504; discussion 504-505.
6. Pandey P, Marks MP, Harraher CD, Westbroek EM, Chang SD, Do HM, et al. Multimodality management of Spetzler-Martin Grade III arteriovenous malformations. *J Neurosurg*. junio de 2012;116(6):1279-88.
7. Jeon HJ, Park KY, Kim SY, Lee JW, Huh SK, Lee KC. Surgical outcomes after classifying Grade III arteriovenous malformations according to Lawton's modified Spetzler-Martin grading system. *Clin Neurol Neurosurg*. septiembre de 2014;124:72-80.
8. Frisoli FA, Catapano JS, Farhadi DS, Cadigan MS, Nguyen CL, Labib MA, et al. Spetzler-Martin Grade III Arteriovenous Malformations: A Comparison of Modified and Supplemented Spetzler-Martin Grading Systems. *Neurosurgery*. 13 de mayo de 2021;88(6):1103-10.
9. Lv X, Hu X, Liu J, He H, Li Y. The influence of age and the initial clinical presentations of patients with an arteriovenous malformation on the risk of hemorrhage. *Neurol India*. 2016;64 Suppl:S87-94.
10. Can A, Gross BA, Du R. The natural history of cerebral arteriovenous malformations. *Handb Clin Neurol*. 2017;143:15-24.
11. Luessenhop AJ, Gennarelli TA. Anatomical grading of supratentorial arteriovenous malformations for determining operability. *Neurosurgery*. 1977;1(1):30-5.
12. Lawton MT, Kim H, McCulloch CE, Mikhak B, Young WL. A supplementary grading scale for selecting patients with brain arteriovenous malformations for surgery. *Neurosurgery*. abril de 2010;66(4):702-13; discussion 713.
13. Naranbhai N, Pérez R. Management of Brain Arteriovenous Malformations: A Review. *Cureus*. enero de 2023;15(1):e34053.
14. Catapano JS, Frisoli FA, Nguyen CL, Wilkinson DA, Majmundar N, Cole TS, et al. Spetzler-Martin Grade III Arteriovenous Malformations: A Multicenter Propensity-Adjusted Analysis of the Effects of Preoperative Embolization. *Neurosurgery*. 15 de abril de 2021;88(5):996-1002.
15. Baharvahdat H, Blanc R, Fahed R, Pooyan A, Mowla A, Escalard S, et al. Endovascular treatment as the main approach for Spetzler-Martin grade III brain arteriovenous malformations. *J Neurointerventional Surg*. marzo de 2021;13(3):241-6.
16. Hassan T, Refaat M, Issa AM, Sultan A, Ibrahim T. Geometrical Characteristics of Grade III Arteriovenous Malformations That Contribute to Better Outcomes in Endovascular Treatment. *World Neurosurg*. 1 de diciembre de 2023;180:e749-55.
17. Bilbao CJ, Bhalla T, Dalal S, Patel H, Dehdashti AR. Comparison of indocyanine green fluorescent angiography to digital subtraction angiography in brain arteriovenous malformation surgery. *Acta Neurochir (Wien)*. marzo de 2015;157(3):351-9.
18. Ellis MJ, Kulkarni AV, Drake JM, Rutka JT, Armstrong D, Dirks PB. Intraoperative angiography during microsurgical removal of arteriovenous malformations in children. *J Neurosurg Pediatr*. noviembre de 2010;6(5):435-43.
19. Gaballah M, Storm PB, Rabinowitz D, Ichord RN, Hurst RW, Krishnamurthy G, et al. Intraoperative cerebral angiography in arteriovenous malformation resection in children: a single institutional experience: Clinical article. *J Neurosurg Pediatr*. febrero de 2014;13(2):222-8.
20. Sorenson TJ, Brinjikji W, Bortolotti C, Kaufmann G, Lanzino G. Recurrent Brain Arteriovenous Malformations (AVMs): A Systematic Review. *World Neurosurg*. agosto de 2018;116:e856-66.
21. Hak JF, Boulouis G, Kerleroux B, Benichi S, Stricker S, Gariel F, et al. Pediatric brain arteriovenous malformation recurrence: a cohort study, systematic review and meta-analysis. *J Neurointerventional Surg*. junio de 2022;14(6):611-7.