

Fístula arteriovenosa dural del canal del hipogloso: reporte de caso y descripción de la anatomía

Biancardi Mauro; Ypa Paula; Minghinelli Federico; Bourguet Martín;
Badilla Tomás; Goland Javier

División Neurocirugía, Hospital de Clínicas "José de San Martín", Universidad de Buenos Aires.
Ciudad Autónoma de Buenos Aires. Argentina

RESUMEN:

Introducción. Las fístulas durales arteriovenosas del canal del hipogloso (FDCH) son infrecuentes y suelen ser diagnosticadas tardíamente. Habitualmente se presentan con compromiso del par XII aunque pueden presentarse con síntomas diversos.

Objetivos. Presentar un caso de FDCH que se presentó con proptosis y ojo rojo tratado por vía endovascular y describir la anatomía asociada.

Descripción del caso. Un hombre de 51 años consultó por quemosis, exoftalmo y dolor ocular leve persistente durante un año. Las pruebas de imagen revelaron una lesión en la base del cráneo, sugestiva de malformación arteriovenosa, con drenaje hacia el bulbo yugular derecho y la vena oftálmica superior derecha. Se descartaron otras causas como tumores metastásicos.

Intervención. Se realizó tratamiento por vía endovascular. Se utilizó un abordaje combinado arterial y venoso. La embolización arterial se hizo con un agente embolizante líquido de etilen vinil alcohol -logrando una oclusión parcial- y luego se completó la misma por vía venosa con hélices de platino (coils), logrando la oclusión total de la fístula. El paciente se recuperó favorablemente, con mejoría progresiva de los síntomas oculares. Experimentó una leve paresia del nervio XII derecha en el período postoperatorio inmediato, que se trató con corticoides. Fue dado de alta al quinto día. En el seguimiento a los 6 meses, la lesión no mostraba persistencia en las imágenes de resonancia magnética.

Conclusión. Se presenta un caso de fístula dural arteriovenosa del canal del hipogloso tratada por vía endovascular con oclusión completa de la misma.

Palabras claves: Canal del hipogloso. Confluencia condílea anterior. Fístulas durales arteriovenosas. Tratamiento endovascular.

Dural arteriovenous fistula of the hypoglossal canal: case report and description of the anatomy

ABSTRACT

Background. Dural arteriovenous fistulas of the hypoglossal canal are infrequent and are usually diagnosed late. They usually present with involvement of the XII cranial nerve, although they can present with various symptoms.

Objectives. To present a case of dural arteriovenous fistulas of the hypoglossal canal that presented with proptosis and red eye treated endovascularly and describe the associated anatomy.

Description of the case. A 51-year-old man presented with chemosis, exophthalmos, and mild eye pain that had persisted for one year. Imaging tests revealed a lesion at the skull base, suggestive of arteriovenous malformation, with drainage towards the right jugular bulb and the right superior ophthalmic vein. Other causes such as metastatic tumors were ruled out.

Surgery. Endovascular embolization was performed to treat the dural arteriovenous fistula. A combined approach using arterial and venous was used. The arterial embolization was done with a liquid embolization agent of ethylene vinyl alcohol -achieving partial occlusion- and then was completed through a venous approach with platinum coils, achieving total occlusion of the fistula. The patient recovered favorably, with progressive improvement of ocular symptoms. He experienced mild right XII nerve palsy postoperatively, which was treated with steroids. He was discharged on the fifth day. At 6-month follow-up, the lesion showed no persistence on magnetic resonance images.

Conclusion. A case of arteriovenous dural fistula of the hypoglossal canal treated endovascularly with complete occlusion is presented.

Key words: Anterior condylar confluence. Dural arteriovenous fistula. Endovascular treatment. Hypoglossal canal

INTRODUCCIÓN

Las fístulas arteriovenosas durales (FAVD) constituyen conexiones anómalas entre arterias durales y senos venosos durales o venas leptomenígeas. La clínica de presentación se relaciona con los territorios que drenan las venas comprometidas, siendo más frecuentes los síntomas oculares en las fístulas del seno cavernoso, y los zumbidos pulsátiles en las fístulas de los senos transversos y sigmoides.

Aunque las (FAVD) de la fosa posterior más frecuentes son aquellas que comprometen los senos transversos y sigmoides, se describen fístulas menos frecuentes localizadas en la base del cráneo en la región petroclival o a nivel de los senos marginales del foramen magno.¹ Este tipo de FAVD se puede desarrollar siempre donde haya una vena que atraviesa un hueso, como es el caso de la vena condílea anterior, que cursa a través del canal del hipogloso y cuya clínica de presentación habitual es el déficit del nervio hipogloso. El objetivo de este artículo es presentar el caso de un paciente con síntomas oculares secundarios a una fístula del canal del hipogloso, tratado por vía endovascular, y describir la anatomía de la confluencia condílea anterior y sus afluentes.

Biancardi Mauro

biancardimauro97@gmail.com

Recibido: octubre de 2023. Aceptado: noviembre de 2023.



Figura 1. Fotografía previa al tratamiento que evidencia la quemosis del ojo derecho (a). Fotografía 6 meses posterior al tratamiento que muestra el ojo derecho sin inyección conjuntival (b).

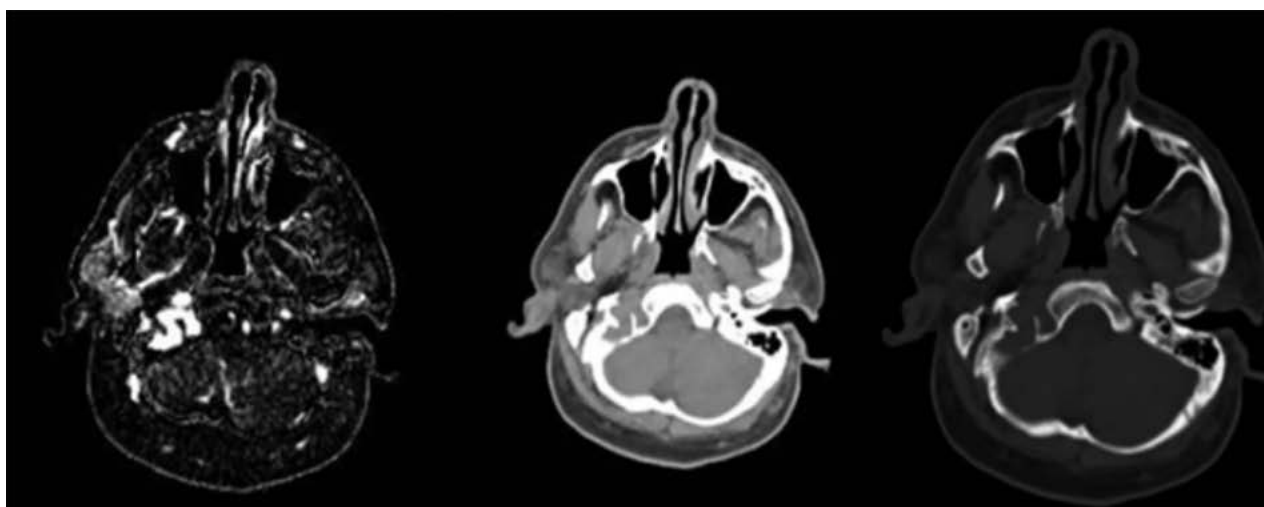


Figura 2. De izquierda a derecha: TC sin contraste que muestra una lesión isodensa localizada en la base del cráneo, en el centro: la ventana ósea de TC objetiva la presencia de erosión ósea a nivel del cóndilo occipital derecho, a la derecha la angiogramografía cerebral evidencia una lesión hipervascularizada localizada a nivel del canal del hipogloso.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Un paciente varón de 51 años de edad, consultó por presentar quemosis, exoftalmo y dolor ocular de intensidad 2/10 de un año de evolución (Figura 1). Se realizó una tomografía computada (TC) de órbita que evidenció exoftalmia derecha, elongación de los músculos extrínsecos y del nervio óptico, e ingurgitación de los vasos intraorbitarios. La TC de cerebro simple evidenció una imagen hipodensa de bordes irregulares y erosión ósea a nivel del foramen yugular y del canal del hipogloso derecho, que

medía 15 por 28 mm. La angioTC objetivó el llenado de toda la lesión (Figura 2). Los diagnósticos diferenciales incluían: tumor metastásico, glomus yugular, schwannoma y malformación vascular. La TC de tórax, abdomen y pelvis descartó la presencia de tumores. Para completar el estudio se le realizó una angiografía digital cerebral que evidenció una malformación arteriovenosa con llenado venoso precoz localizada en la base del cráneo, con aferencias de ramos de la arteria faríngea ascendente, occipital y auricular posterior derecha, y de la arteria faríngea ascendente izquierda. Presentaba dos tipos de drenaje: uno an-

terógrado al bulbo yugular derecho, y otro retrógrado hacia la vena oftálmica superior derecha, a través del seno petroso inferior (SPI) y del seno cavernoso derecho (Figura 3 a y b).

INTERVENCIÓN

Se decidió realizar un tratamiento endovascular con embolización de la fístula, con abordaje combinado por vías arterial y venosa. A través del abordaje arterial se cateterizó selectivamente el tronco meníngeo de la arteria faríngea ascendente con un microcatéter de punta desprendible, y se realizó la embolización con 4 viales del agente líquido embolizante copolímero de etilen vinil alcohol (EVOH), con un tiempo de inyección de 60 minutos, logrando la oclusión parcial de la FAVD (Figuras 3 c, d y e). A continuación, a través del abordaje venoso femoral izquierdo se cateterizó selectivamente el lago venoso en el que desembocaba la fístula (confluencia condílea anterior) y se embolizó con diez microcoils de platino (Figura 3 f), evidenciándose la oclusión total de la fístula dural al final del procedimiento (Figuras 3 g y h). El paciente toleró la embolización favorablemente. Cursó el postoperatorio inmediato en terapia intensiva, donde presentó mejoría progresiva de los síntomas oculares (Figura 1 b). A las 24 hs del procedimiento desarrolló una paresia leve del XII par derecho, sin disfagia ni disartria, por lo que recibió una dosis de corticoides de depósito, y fue dado de alta al quinto día. En el control a los 6 meses por angioRM, en el tiempo venoso no se observa persistencia de la lesión (Figura 3 i).

DISCUSIÓN

Anatomía de la confluencia condílea anterior.

El canal del hipogloso se localiza dentro del cóndilo del occipital en situación inferomedial al foramen yugular. A través de este canal transcurren estructuras nerviosas y vasculares: el nervio hipogloso (par XII), ramos meníngeos de la arteria faríngea ascendente y la vena condílea anterior (también denominada plexo venoso del nervio hipogloso). La vena condílea anterior (VCA) es la continuación craneal del plexo venoso vertebral antero-interno, transcurre por el canal del hipogloso y desemboca en la confluencia condílea anterior (CCA). Existen conexiones indirectas entre la VCA y el seno marginal. La vena condílea lateral (VCL) se extiende desde el plexo venoso que rodea a la arteria vertebral (PVAV) a nivel de la segunda vértebra cervical hasta la CCA. La misma corre en forma lateral al cóndilo occipital. La CCA es una estructura venosa extracraneal de 5 mm localizada por delante del canal del hipogloso, medial a la vena yugular interna. Provee

conexiones entre la circulación venosa craneal y el sistema venoso vertebral. Está formado por anastomosis de la VCA, la VCL, el plexo venoso pericarotídeo de Rektorzik (PVR), ramos de la vena yugular interna o del bulbo yugular, ramos del seno petroso inferior y del plexo venoso vertebral. Todas estas estructuras venosas carecen de válvulas y poseen circulación multidireccional.^{2,3} La CCA se conecta con el seno cavernoso a través del seno petroso inferior y el PVR, y con el sistema venoso espinal a través de las VCA y VCL (Figura 4 a y b). La vena yugular interna constituye la vía más importante de drenaje venoso intracraneal en el decúbito dorsal. Fuera del decúbito, el colapso de la vena yugular interna determina que el drenaje venoso se realice principalmente al sistema venoso vertebral a través de la CCA.

Fístulas durales del canal del hipogloso (FDCH).

Las fístulas arteriovenosas durales del canal del hipogloso (FDCH) fueron descritas por Ernst y cols. en 1999.⁶ Son lesiones poco frecuentes que representan el 3-4% de todas las FAVD, e involucran a la CCA y/o a la VCA. El gran polimorfismo clínico que presentan dichas fístulas está relacionado con su topografía y con la dirección del drenaje de las mismas.

Manabe y cols. describieron la FDCH como aquella que recibe aferencias de los ramos neuromeníngeos de la arteria faríngea ascendente a través del foramen yugular y/o del canal del hipogloso, ramos de la arteria occipital a través del agujero mastoideo y ramos meníngeos de la arteria vertebral a través del foramen magno drenando a la VCA y/o a la CCA. Este tipo de fístulas puede presentarse con tinnitus pulsátil, quemosis, proptosis y dolor ocular, mielopatía cervical o hemorragia cerebral, dependiendo del sentido principal del drenaje venoso.^{2,3} Existen casos aislados en los que las fístulas durales podrían estar asociadas a traumatismos craneoencefálicos. Kiyosue y cols. estudió que dentro del canal del hipogloso la vena condílea anterior, la rama hipoglosa del tronco neuromeníngeo de la arteria faríngea ascendente y el nervio hipogloso están fijados por tejido conectivo laxo. Esta condición anatómica determina que una rápida aceleración o desaceleración por trauma leve pueda dañar los vasos generando una comunicación arteriovenosa anómala durante el proceso de reparación.⁴

Clasificaciones de las FDCH

Las FAVD en general se clasifican en base al seno dural al que se dirige el flujo y a la presencia de reflujo a venas piales. La clasificación más conocida es la de Cognard, la cual se basa en la dirección y la arquitectura del drenaje venoso. Spittau confeccionó una clasificación de FDCH en base a su serie personal, modificando una clasificación

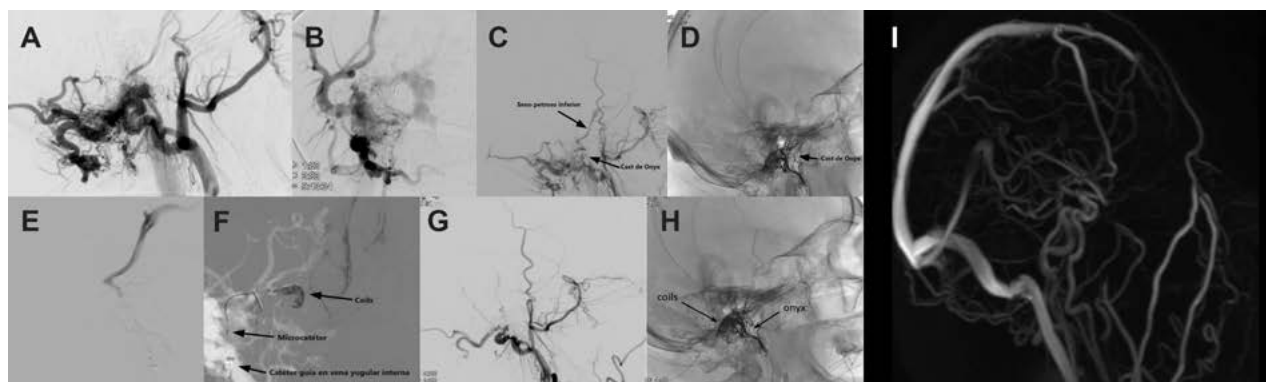


Figura 3. Angiografía cerebral diagnóstica: Incidencia perfil (a) y frente (b). Imágenes angiográficas intraprocedimiento: Embolización con EVOH por vía arterial con sustracción (c) y sin sustracción (d). Angiografía perfil con inyección superselectiva del seno petroso inferior que evidencia persistencia de fístula (e). Roadmap frente con implantación de las hélices de platino en el lecho venoso (f). Control final en proyección en perfil: se observa oclusión total de la lesión con sustracción (g) y el conglomerado de EVOH y las hélices de platino sin sustracción (h). AngioRM control a 6 meses en tiempo venoso sin lesión residual (i).

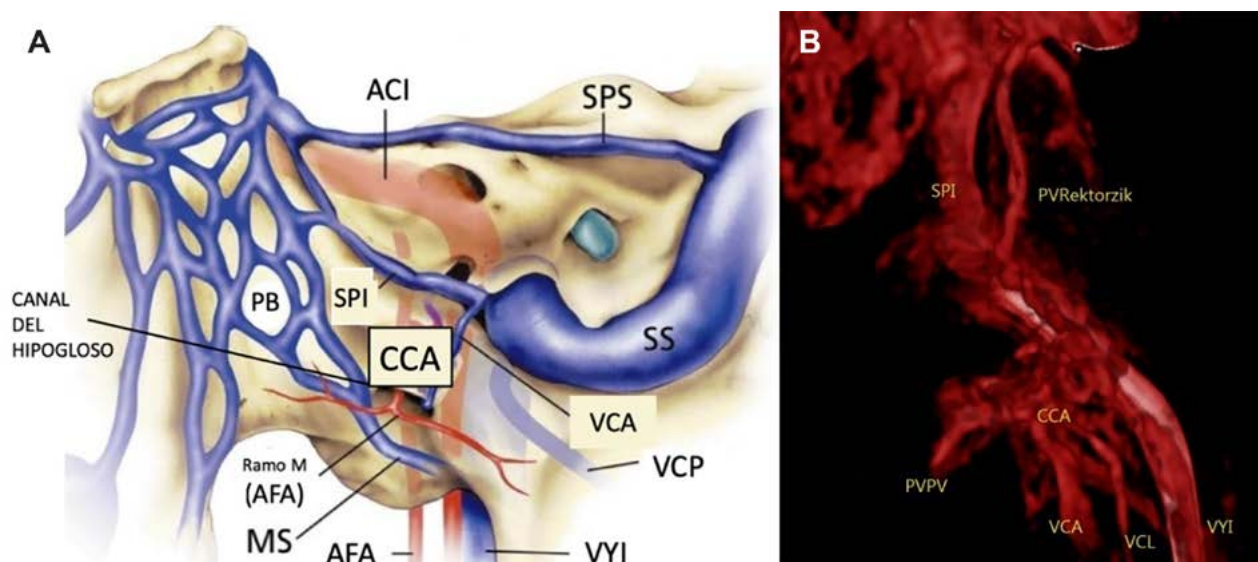


Figura 4. Ilustración de los componente de la Confluencia Condílea Anterior (CCA). Arteria Carótida Interna (ACI); Arteria Faringea Ascendente (AFA); Rama meníngea de la arteria faringea ascendente Ramo M; Vena condílea anterior (VCA); Vena condílea posterior (VCP); Plexo Basilar (PB); Seno petroso superior (SPS); Seno Petroso Inferior (SPI); Seno Marginal (SM); Seno Sigmoides (SS); Vena Yugular Interna (VYI). Modificado de Ernst R, Bulas R, Tomsick T, van Loveren H, Aziz KA. Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. *AJNR Am J Neuroradiol*. 1999 Nov-Dec; 20(10): 2016-20 (a). Venografía cerebral con reconstrucción tridimensional donde se evidencia: Seno petroso inferior (SPI); Plexo venoso pericarotideo de Rektorzik; Confluencia condílea anterior (CCA); Plexo venoso vertebral (PVPV); Vena condílea anterior (VCA); Vena condílea lateral; Vena yugular interna (VYI) (b).

previa de McDougall basada en el drenaje venoso, a la que agregó la correlación clínica.² Esta incluye 3 categorías:

- Tipo 1: drenaje venoso dominante anterógrado a la vena yugular interna y/o al plexo venoso vertebral, con o sin reflujo al seno transversal, sigmoideo, petroso inferior o seno cavernoso. Clínica: tinnitus pulsátil.
- Tipo 2: drenaje venoso dominante retrógrado al seno cavernoso, con o sin drenaje anterógrado a la vena yugular interna y/o plexo venoso vertebral y/o reflujo a venas corticales. Clínica: quemosis, proptosis y dolor ocular.
- Tipo 3: drenaje venoso dominante o exclusivo al cerebro o venas perimedulares. Clínica: mielopatía cervical o hemorragia intracerebral.

En nuestro caso se trató de una FDCH de tipo 2 ya que drenaba principalmente al seno cavernoso y a la vena oftálmica, generando síntomas oculares, con drenaje anterógrado a la vena yugular interna.

Diagnóstico

Para el diagnóstico de esta entidad se tiene en primera instancia, debido a su sensibilidad y bajo costo, la TC y la resonancia magnética (RM) de encéfalo que pueden evidenciar una lesión hipervascularizada a nivel del conducto del hipogloso. El diagnóstico diferencial de estas imágenes es con tumores vascularizados de la región.³ El método de diagnóstico “gold standard” es la angiografía cerebral con sustracción osea digital, la cual brinda el conocimiento

completo de las aferencias de la fístula, la localización precisa del sitio de comunicación anómalo entre las aferencias y la vena de drenaje, y la presencia de flujo a contracorriente tanto hacia senos duros como venas piales.

Tratamiento

El abordaje más utilizado para tratar estas fístulas es el endovascular, por su alta tasa de curación y baja morbilidad. El mismo se puede realizar por vía venosa o arterial. En base a la clasificación de Spittau las FDCH de tipo 1 y 2 pueden ser tratadas de manera segura y efectiva a través de la vía transvenosa. Para las de tipo 3 la vía transvenosa no es posible y se plantea el uso de la vía transarterial o quirúrgica.^{2,3,4} El abordaje transvenoso condujo a la tasa más alta de curación clínica (91%), con un riesgo terapéutico relativamente bajo (morbilidad permanente 2,9%). La vía transarterial presenta mayor recurrencia, pero sí puede ser de utilidad para disminuir el flujo de sangre hacia la fístula como método coadyuvante. El acceso venoso más directo es a través de la vena yugular interna ipsilateral. En algunos casos las venas de conexión con el lago venoso pueden estar obstruidas, ser pequeñas o tortuosas, lo que dificulta el abordaje venoso ipsilateral. En tales casos una posibilidad de abordaje podría ser la vía transvenosa cruzada desde la vena yugular interna o el seno petroso inferior contralaterales, a través del seno intercavernoso. El acceso transvena yugular interna contralateral también se puede lograr a través de conexiones prevertebrales entre ambas CCA. Existe también la técnica de doble microcatéter, en la que un microcatéter se coloca distalmente en el seno cavernoso y/o el seno petroso inferior y otro proximalmente al lago venoso. El microcatéter distal puede servir como acceso de rescate a la fístula en caso de que se pierda la posición del microcatéter proximal o en caso de que persista flujo hacia la fístula después de la oclusión proximal con coils. La cirugía se suele reservar para aquellos casos en los que la vía endovascular no fue satisfactoria. Los abordajes quirúrgicos que se utilizan más comúnmente son los suboccipitales o el extremo-lateral. En los casos en que la vía de abordaje es difícil se puede plantear la radiocirugía estereotáctica.^{2,3,6}

En nuestro caso, a pesar de ser una FDCH tipo 2, decidimos realizar un tratamiento endovascular en forma combinada. Inicialmente realizamos un abordaje transarterial y embolización con copolímero de etilen vinil alcohol (EVOH) de la lesión para disminuir el flujo sanguíneo

en la fístula y poder determinar mejor los límites anatómicos de la misma. Además, dado que el cateterismo venoso de la lesión no siempre resulta sencillo, este abordaje nos aseguraba una gran disminución del flujo de la misma como único tratamiento. Una vez delimitada la lesión con el EVOH, procedimos a ocluir la porción venosa de la fístula. Realizamos el abordaje venoso a través de la vena femoral, con un sistema triaxial para lograr adecuado soporte, y para tener la opción de realizar abordaje venoso cruzado en el caso de que fuera necesario. El lago venoso se pudo localizar y cateterizar en forma selectiva a través de la vena yugular interna ipsilateral ocluyendo la lesión con hélices de platino (coils) en forma completa.

Complicaciones

Dentro de las complicaciones de la embolización se describe la parálisis del XII par como la más frecuente. La misma se presenta con disartria y disfagia y puede ser secundaria al reflujo del adhesivo embolizante en ramas de la arteria faríngea ascendente que ocluye ramos nutricios del nervio (vasa nervorum) o a la toxicidad local generada por el disolvente en el que se diluye el EVOH: dimetil sulfoxido (DMSO). Otras complicaciones menos frecuentes son la paresia de los pares VII, VIII, IX y X. Para dichas complicaciones se sugiere el tratamiento farmacológico con prednisolona.^{5,6} En este caso el paciente presentó paresia del XII par derecho, que mejoró con resolución completa del déficit luego de tratamiento con corticoides.

CONCLUSIÓN

Repasamos la anatomía de las venas asociadas a la confluencia condílea anterior y reportamos el caso de un paciente con FDCH que consultó por síntomas oculares. El paciente fue tratado por vía endovascular con un abordaje combinado venoso y arterial con hélices de platino y agente líquido embolizante respectivamente. El resultado final del tratamiento fue la oclusión completa de la fístula con remisión de los síntomas.

Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Los autores no recibieron ningún apoyo financiero para la investigación, la autoría y/o la publicación de este artículo.

Este es un artículo de acceso abierto bajo la licencia CC BY-NC <https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>

BIBLIOGRAFÍA

1. Kun Hou, Xianli Lv, Lai Qu, Yunbao Guo, Kan Xu, Jinlu Yu. Endovascular treatment for dural arteriovenous fistulas in the petroclival region. *Int J Med Sci.* 2020; 17(18): 3020-30. doi: 10.7150/ijms.47365
2. Spittau B, Millán DS, El-Sherifi S, Hader C, Singh TP, Motschall E, Vach W, Urbach H, Meckel S. Dural arteriovenous fistulas of the hypoglossal canal: systematic review on imaging anatomy, clinical findings, and endovascular management. *J Neurosurg.* 2015 Apr; 122(4): 883-903. doi:10.3171/2014.10.JNS14377.
3. Liu JK, Mahaney K, Barnwell SL, McMenomey SO, Delashaw JB Jr.

- Dural arteriovenous fistula of the anterior condylar confluence and hypoglossal canal mimicking a jugular foramen tumor. *J Neurosurg.* 2008 Aug;109(2):335-40. doi: 10.3171/JNS/2008/109/8/0335.
4. Manabe S, Satoh K, Matsubara S, Satomi J, Hanaoka M, Nagahiro S. Characteristics, diagnosis and treatment of hypoglossal canal dural arteriovenous fistula: report of nine cases. *Neuroradiology.* 2008 Aug; 50(8): 715-21. doi: 10.1007/s00234-008-0393-7.
 5. Pei W, Huai-Zhang S, Shan-Cai X, Cheng G, Di Z. Isolated hypoglossal nerve palsy due to endovascular treatment of a dural arteriovenous fistula with Onyx-18. *Interv Neuroradiol.* 2010 Sep;16(3): 286-9. doi: 10.1177/159101991001600310.
 6. Ernst R, Bulas R, Tomsick T, van Loveren H, Aziz KA. Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1999 Nov-Dec;20 (10): 2016-20.