

Reporte de Caso



Absceso cerebral secundario a fistula arteriovenosa pulmonar en un paciente con Síndrome de Osler-Weber-Rendu.

Cerebral abscess as a result of pulmonary arteriovenous fistula in a patient with Osler-Weber-Rendu syndrome.

Medina O.¹, Hernández E.¹, Córdoba M.¹, Ochoa D.¹, García U.², Domínguez C.³, Santillán W.⁴, Guerra J.¹, Bravo U.⁵, Méndez R.⁵

RESUMEN

Se presenta un caso de un masculino de 70 años de edad, con antecedente de padecer síndrome de Osler-Weber-Rendu, con deterioro neurológico agregado secundario a absceso cerebral en fase capsular tardía en cápsula interna izquierda derivado de malformación arteriovenosa pulmonar izquierda como hallazgo. Se realizó resección de cápsula y absceso cerebral, y se derivó a cirugía de tórax para resección de malformación arteriovenosa pulmonar.

Palabras claves: Osler-Weber-Rendu, absceso cerebral, fístulas arteriovenosas pulmonares.

1. Residente de Neurocirugía, Hospital Central Sur de Alta Especialidad, PEMEX, Ciudad de México, México.
2. Jefe de servicio de Neurocirugía, Hospital Central Sur de Alta Especialidad, PEMEX, Ciudad de México, México.
3. Médico adscrito al servicio de Neurocirugía, Hospital Central Sur de Alta Especialidad, PEMEX, Ciudad de México, México.
4. Médico adscrito al servicio de Medicina Interna, Hospital Regional de Salamanca, PEMEX, Salamanca, Guanajuato, México.



ABSTRACT

We present a case of a 70-year-old male with a history of Osler-Weber-Rendu syndrome, presenting neurological deterioration secondary to cerebral abscess in late capsule phase localized in the left internal capsule derived from a left pulmonary arteriovenous malformation as a finding. Resection of capsule and brain abscess was performed, and the patient was referred to chest surgery for resection of pulmonary arteriovenous malformation.

Key Words: Osler-Weber-Rendu, cerebral abscess, pulmonary arteriovenous malformation.

INTRODUCCION

La telangiectasia hemorrágica hereditaria (THH) o síndrome de Osler-Weber-Rendu, enfermedad rara autosómica dominante debido a defecto genético, ocasionando displasia fibrovascular¹ (lesiones patognomónicas multiorgánicas): telangiectasias y malformaciones arteriovenosas (MAVs)². La prevalencia es 1:10,000² de esta enfermedad. En pacientes con síndrome de Osler-Weber-Rendu se desarrollan fístulas arteriovenosas pulmonares (FAVs) en un porcentaje similar al 50%³, ocasionando

abscesos cerebrales (ACs) por diseminación hematológica³.

CASO CLÍNICO

Masculino, edad 70 años, THH hace 11 años, hemorragia intracraneal por telangiectasia en tres ocasiones hace diez, cuatro y dos años con secuelas motoras en hemicuerpo derecho. Con dos meses de evolución presentando deterioro neurológico progresivo motor en hemicuerpo derecho y afasia motora, sin antecedentes de fiebre. Presenta múltiples lesiones vasculares en piel y mucosas (Figura 1).

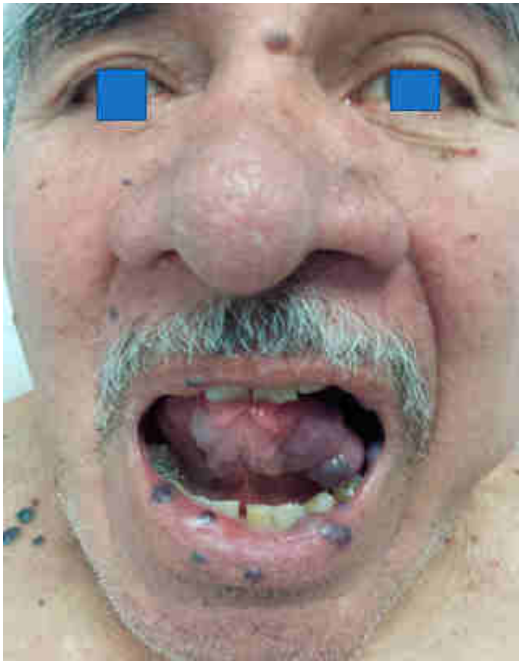


Figura 1. Lesiones vasculares piel y mucosas.

Neurológicamente disartria, paresia facio-corporal derecha exacerbada a la ya preexistente que limita la marcha. Se realizan estudios de imagen simple y contrastada de encéfalo y tórax para descartar absceso pulmonar primario por estadística (figuras 2-4).

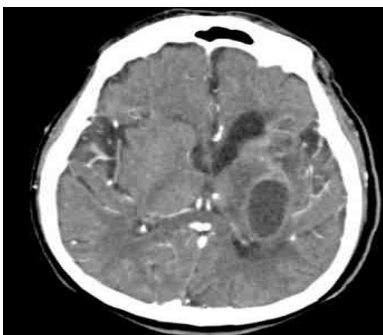


Figura 2. Tomografía computada de cráneo simple y contrastada se aprecia lesión hipodensa con realce de halo circundante a la administración de medio de contraste en región talámica posterolateral izquierda.

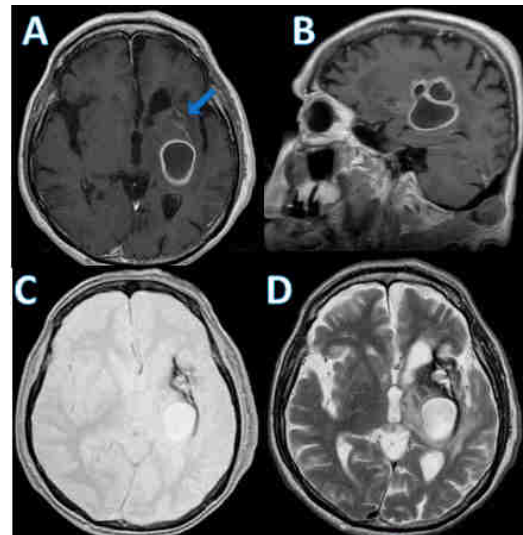


Figura 3. Resonancia magnética: A) ponderada en T1 se muestra lesión hipointensa en misma región, con halo que refuerza a la administración de medio de contraste, se aprecia además lesión insular izquierda sugerente de MAV (flecha); B) Corte sagital T1 contrastado; C) Eco gradiente; D) T2 corte axial.

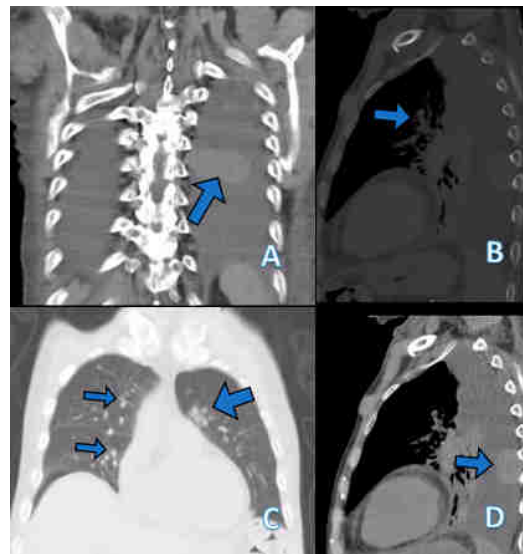


Figura 4. Tomografía computada de tórax simple y contrastada para descartar foco origen de foco infeccioso, en la cual se apreció diversas lesiones vasculares parahiliares (B y C, flechas), además de lesión ovoidea en pulmonar izquierda en su cara posterior (29x59x29mm) sugerente de lesión vascular intrapulmonar (A y D, flechas).

Laboratorios: anemia normocítica-normocrómica, trombocitopenia, sin

incremento leucocitos/neutrófilos, procalcitonina parámetros normales. Sospechamos un AC en fase capsular tardía, realizando aspiración y resección parcial de cápsula, abordaje pterional izquierdo; hallazgos: lesión, cápsula fibrosa, contenido purulento 9 centímetros cúbicos. Imagen posoperatorio inmediato (Figura5).

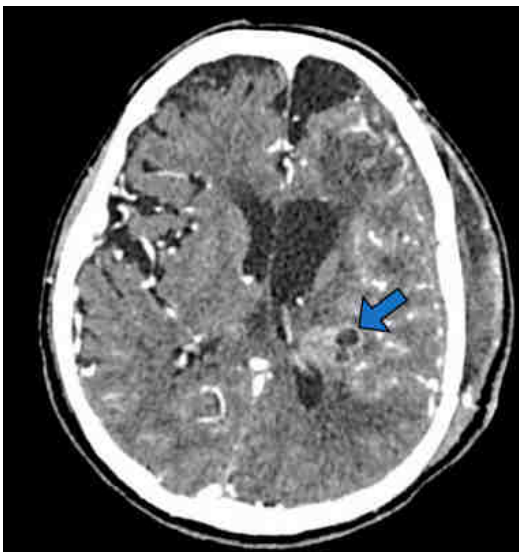


Figura 5. Tomografía computada de cráneo simple y contrastada, corte axial, posoperatoria inmediata. Residual (flecha).

Se manejó con esquema antibiótico de manera empírica desde su ingreso hasta 8 semanas posteriores a egreso hospitalario. Se derivó a cirugía de tórax para resección de MAV pulmonar. A los 30 días de seguimiento se encontraba con hemiparesia derecha 4-/5, con tolerancia a la deambulación y sin afasia motora.

DISCUSION

Los ACs derivados de una MAV pulmonar en pacientes con síndrome de Osler-Weber-Rendu ocurren de un 5% al 10% y en pacientes con THH pueden ocurrir en el 1% de los pacientes con una mortalidad de hasta 40%⁴. Existen 3 mecanismos propuestos para la formación de ACs en THH: 1)émbolo estéril que produce un infarto cerebral; 2)émbolo séptico que produce un infarto; y 3)presencia de hipoxia cerebral y policitemia. Todos favorecen un medio adecuado para el desarrollo bacteriano⁵.

CONCLUSIONES

En la THH como enfermedad infrecuente con un AC asociado es importante entender el mecanismo fisiopatológico, diferente al ausente de THH, siendo el tratamiento neuroquirúrgico y multidisciplinario el de elección, además de sospechar dicho diagnóstico con mencionado antecedente y deterioro neurológico progresivo.





REFERENCIAS:

1. Celia Priscilla Macías Horowich, Mario Osorio Valero y Mario Lemus: Síndrome de Osler Weber Rendu. Presentación de un caso y revisión de la bibliografía **Anales de Radiología México** 2010;4:217-222.
2. Waleed Brinjikji, MD; Vivek N. Iyer, MD; Thomas Sorenson, BS; Giuseppe Lanzino, MD: Cerebrovascular Manifestations of Hereditary Hemorrhagic Telangiectasia, **Stroke**, 2015;46:3329-3337.
3. Bacterial Infections of the Parenchyma and Meninges and Complex Infections: Cerebral abscess en: Mark S. Greenberg, **Handbook of Neurosurgery**, 8th ed.Thieme Medical Publishers, Inc; 2016.p.320-326.
4. Sandy L Dong, MD, Stuart F Reynolds, MD (CCFP (EM)),Ivan P Steiner, MD (MCFP (EM), FCFP): Brain abscess in patients with hereditary hemorrhagic telangiectasia: Case report and literatura review, **The Journal of Emergency Medicine**, Vol. 20, No. 3, pp. 247-251, 2001.
5. W. Eugene Stern, M.D. and Howard C. Naffziger, M.D.: Brain abscess associated with pulmonary angiomatous malformation. **Ann Surg** 1953;138:521-31.

Correspondencia:

Dr. Óscar Medina Carrillo

Email: dromercar@gmail.com

Recibido : 12/10/17

Aprobado : 26/10/17

Conflicto de intereses : Los autores declaran no presentar conflicto de intereses