

Isquemia cerebral tardía tras la rotura de malformación arteriovenosa: Reporte de caso

Delayed cerebral ischemia after rupture of arteriovenous malformation: case report

Johann Bill Pinedo-Ávila ¹, Mayra Leonor Rivera-Paico ², Hugo Justo Peralta-Olortegui ³

RESUMEN

El vasoespasma cerebral (VC) es una complicación que puede ocurrir después de una hemorragia subaracnoidea (HSA), caracterizada por la contracción de las arterias cerebrales, que puede manifestarse radiológica o clínicamente como isquemia cerebral tardía (ICT). Aunque la HSA aneurismática es la principal causa del vasoespasma, también se ha visto en malformaciones arteriovenosas (MAV). En este trabajo se describe el caso de una paciente de 13 años con antecedentes de MAV occipital izquierda rota, que desarrolló ICT después de la rotura de la MAV durante una embolización. La paciente fue tratada en la unidad de cuidados intensivos de neurocirugía, donde se le colocaron drenajes ventriculares externos (DVE), osmotherapia con manitol, vasopresores y corticoides. La paciente logró una buena recuperación en los primeros días después del tratamiento, pero presentó un deterioro neurológico después de dos semanas. A pesar de la aparición de hipodensidades discretas de nueva aparición, la paciente se recuperó satisfactoriamente.

Palabras clave: vasoespasma intracraneal, malformaciones vasculares del sistema nervioso central, hemorragia cerebral, hemorragia cerebral intraventricular, isquemia encefálica, embolización terapéutica.

ABSTRACT

Cerebral vasospasm (CV) is a potentially fatal complication that may arise following subarachnoid hemorrhage (SAH), leading to the constriction of cerebral arteries and subsequent delayed cerebral ischemia (DCI). Although CV is most commonly associated with aneurysmal SAH, it has also been reported in patients with arteriovenous malformations (AVMs). In this report, we present the case of a 13-year-old patient with a history of ruptured left occipital AVM who developed DCI after AVM rupture during embolization. The patient was managed in the neurosurgery intensive care unit and received external ventricular drains (EVD), osmotherapy with mannitol, vasopressors, and corticosteroids. While the patient exhibited initial signs of improvement, neurological deterioration occurred two weeks later despite the appearance of new discrete hypodensities. However, the patient ultimately made a satisfactory recovery. Our findings underscore the importance of close monitoring and timely intervention in patients with AVM-related CV to improve clinical outcomes.

Keywords: cerebral arteriovenous malformation, intracranial vasospasm, intracranial subarachnoid hemorrhage, intracerebral hemorrhage, cerebral intraventricular hemorrhage, therapeutic embolization.

¹ Médico intensivista, Coordinador Académico de la UCI de Neurocirugía del Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen, Lima - Perú.

² Médico Residente del Hospital Regional Docente de Cajamarca, Cajamarca - Perú.

³ Médico Residente del Hospital de Emergencias de Villa El Salvador, Lima -Perú.

Citar como: Pinedo-Ávila J, Rivera-Paico M, Peralta-Olortegui H. Isquemia cerebral tardía tras la rotura de malformación arteriovenosa: Reporte de caso. *Interciencia méd.* 2024;14(3): 59-64. DOI: [10.56838/icmed.v14i3.221](https://doi.org/10.56838/icmed.v14i3.221)

Recibido: 04/07/2023 **Aprobado:** 18/07/2024



Esta obra está bajo una licencia internacional [Creative Commons Atribución 4.0](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/).

Introducción

El vasoespasmo cerebral (VC) se ha definido como una contracción focal o difusa de las arterias cerebrales que sigue a una hemorragia en el espacio subaracnoideo¹ que puede ser en primer lugar, radiológico, que corresponde a la estenosis arterial que se observa en la angiografía cerebral, a menudo acompañada de un entecimiento del llenado del contraste, en segundo lugar puede ser clínico o sintomático que se expresa como ICT de aparición diferida luego de una HSA cuyas características clínicas consisten en confusión o alteración de la conciencia o déficit neurológico focal de habla o motor, es un diagnóstico de exclusión que a veces no es posible definir con certeza.¹

La HSA aneurismática es la principal causa del vasoespasmo, aunque también se ha visto en menor frecuencia después del sangrado de una malformación arteriovenosa (MAV), tumores o lesión cerebral traumática (LCT). Aunque cierto grado de vasoespasmo es visible angiográficamente en hasta el 70 % de los pacientes con HSA aneurismática, solo el 30 % de todos los pacientes con HSA desarrollan síntomas clínicos atribuibles a la ICT. Puede surgir con mayor frecuencia entre los días 3 a 14 de la hemorragia.²

Las MAV se caracterizan como una maraña anormal de vasos sanguíneos que da como resultado una derivación arteriovenosa de las arterias piales en canales corticales o venosos profundos. Aunque se ha registrado vasoespasmo en MAV, la incidencia y el manejo no está muy clara. La hipertensión inducida y la euvolemia tienen el potencial de prevenir o minimizar la ICT en pacientes

con VC en HSA aneurismática, pero resulta poco claro cuando es debido a MAV.² En el presente trabajo describimos el caso de una paciente con diagnóstico de isquemia cerebral tardía tras una rotura de MAV.

Caso Clínico

Se reporta el caso de una paciente mujer de 13 años con antecedentes de epilepsia estructural y embolizada hace 3 años por MAV occipital izquierda rota Spetzler Martin II Buffalo 2, con secuela de hemiparesia derecha, sin otro antecedente patológico. Acudió por emergencia del Hospital Nacional Guillermo Almenara Irigoyen por presentar cefalea, al examen físico presentó escala de coma de Glasgow (ECG) en 15 puntos, pupilas isocóricas, fotorreactivas, hemianopsia, hemiparesia derecha con Escala de Daniels (ED) 4/5, sin déficit sensitivo.

Se realizó embolización y durante la misma presentó rotura de MAV, a nivel del segmento P2, por lo que se coloca 2 DVE a nivel frontal (derecho e izquierdo) de emergencia. En tomografía computarizada (TC) cerebral sin contraste se evidenció ventrículos colapsados, HSA difusa, edema cerebral difuso. (**Figura 1**) Fue trasladado a la unidad de cuidados intensivos de neurocirugía con pupilas midriáticas, en ventilación mecánica, con presión arterial de 140/70 mmHg y frecuencia cardíaca en 80 latidos por minuto. Se colocó sensor de presión intracraneal (PIC), osmoterapia con manitol, vasopresores para optimizar la presión de perfusión cerebral (PPC) y corticoides, logrando PIC menor a 20 mmHg en las primeras 24 horas debido a drenaje de líquido cefalorraquídeo (LCR) por DVE de 20ml/h.



Figura 1. A: TC cerebral antes de la embolización. B: HSA por rotura de MAV tras embolización, que compromete ventrículos. C: Colocación de DVE frontales derecha e izquierda.

Al día siguiente se retiró la sedación y se extubó. Al tercer día con ECG: 14/15, hemiparesia derecha ED: 3/5, y al cuarto día se retiró el sensor de PIC en ausencia de valores patológicos.

A los 14 días del evento se clampó la DVE frontal izquierda, y 6 horas después presentó deterioro neurológico (ECG: 10/15, somnolencia, afasia, hemiparesia derecha) por lo que se procedió a abrir nuevamente el DVE izquierda. Sin embargo, se observó únicamente drenaje de 25 ml aproximadamente, de consistencia sero sanguinolenta. En TC cerebral control se evidenció hipodensidad occipital izquierda de nueva aparición y HSA residual, lo que motivó en reiniciar osmotherapia con manitol.

Así también, se administró antibioticoterapia empírica por sospecha de infección de los DVE, dado el tiempo prolongado de estos, sin embargo, durante su hospitalización los marcadores inflamatorios y los cultivos de LCR negativos nos permitió descartar ventriculitis.

A los 18 días del evento presentó vómitos sin variación del estado neurológico. En TC control se evidenció mayor hipodensidad en lóbulo occipital temporal y frontal izquierdo, HSA y edema difuso, sin signos de hipertensión endocraneana. (**Figura 2**) Se sospechó de ICT debido a VC y de modo empírico se inició nimodipino (60mg cada 4 horas, vía oral, por 7 días), vasopresores (norepinefrina endovenoso) para optimizar PAM 90-110 mmHg durante 10 días, y adicionalmente osmotherapia con soluciones hipertónicas en los tres días siguientes (a dosis del 3% 120ml cada 4 horas endovenoso).

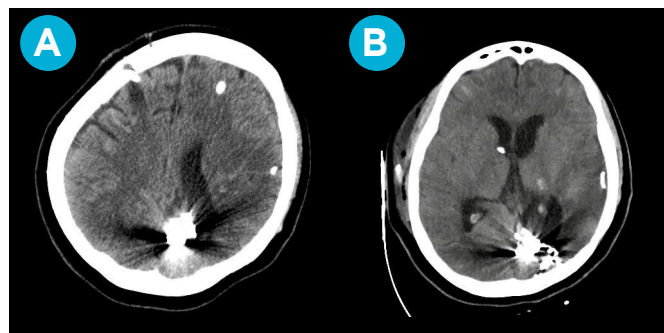


Figura 2. A: TC cerebral donde se visualiza edema cerebral, hipodensidades en región occipital, parietal y frontal izquierdas en el día 18. B: tres días después con discreta mejoría de las hipodensidades.

A los 20 días del evento se retiró DVE derecho e interiorizó el DVE izquierdo. A los 24 días del evento hablaba con palabras inapropiadas, el estado de conciencia era oscilante.

A los 32 días del evento el estado de conciencia tuvo mejoría permanente: el paciente despertó, habló de manera lúcida y siguió órdenes de forma coherente. Se brindó terapia física y psicológica los días siguientes y fue dada de alta 53 días después del evento. En el seguimiento a los 3 meses la paciente lucía con Rankin modificado de 1.

Discusión

En este artículo, se presenta el caso de una paciente adolescente con isquemia cerebral tardía que desarrolló una lesión perilesional en el hemisferio cerebral izquierdo después de una HSA provocada por la rotura de una MAV occipital izquierda. Además, se observó hemorragia intraventricular (HIV) secundaria en una TC cerebral sin contraste.

Entre las causas de isquemia cerebral tardía, el VC es reversible, lo que ha llevado a la mayoría de los enfoques a centrarse en su predicción, diagnóstico y tratamiento. Aunque el VC está bien caracterizado en el contexto de la HSA aneurismática, se sabe comparativamente poco sobre este fenómeno después de la ruptura de una MAV.

Se ha demostrado que hay una mayor incidencia de VC en mujeres jóvenes,³ lo cual podría deberse a la aterosclerosis y la rigidez de los vasos asociados con la edad. Además, es posible que el predominio femenino se deba a un efecto estimulante de los estrógenos sobre el tono vascular.³

Las características de la hemorragia después de la rotura de una MAV pueden ser variadas, incluyendo HSA, HIV, hemorragia intraparenquimatosa o una combinación de estas. La aparición de HSA aislada y VC varía en los estudios. Por ejemplo, una recopilación de casos mostró una prevalencia del 6,3%,³ mientras que un análisis de 160 MAV rotas demostró que el patrón de HSA Fisher modificado 3 y 4 se asoció con VC (valor $p < 0,0001$).⁴ Sin embargo, otros estudios

no han encontrado una asociación significativa entre la presencia de HSA o HIV y el desarrollo de VC.^{5,6}

Por otro lado, la HIV aislada y el VC también se han asociado de modo variable.^{3,5-8} Algunos estudios han reportado una prevalencia del 1,96% en series determinadas,³ mientras que otros han demostrado que únicamente aquellos que presentaron HIV aislada se asociaron con VC⁵, incluso, más recientemente, un estudio retrospectivo también lo asoció de modo independiente.⁶

Aunque evaluar la presencia de VC es crucial, parece ser que la isquemia cerebral tardía es la que finalmente se relaciona con los resultados de mortalidad. Un análisis de 7.215 pacientes con MAV demostró que quienes desarrollaron isquemia cerebral tardía estuvieron asociados con los resultados de mortalidad hospitalaria y de menor probabilidad de alta rutinaria, mientras que el VC no lo estuvo.⁶ Algunos reportes retrospectivos no describen ICT,^{3,4} y quienes lo hacen describen una incidencia de 11,8%,⁶ asociando la HIV con ICT ($p = 0,006$),⁵ así como en otros.⁷⁻⁹

En relación al tiempo de aparición del VC, se han reportado diversos intervalos, que oscilan entre 6 y 15 días,^{3-5,9} Por su parte, la ICT muestra una media de 9.5 días (con un rango de 4 a 15 días),⁵ aunque existen casos inusuales con hasta 29 días de VC e ICT.⁷

En este contexto, nuestra paciente presentó una ICT en el día 18 después de la rotura de la MAV, con hallazgos tomográficos discretos de hipodensidad. No se le realizó una prueba de imagen para evaluar el VC, pero tenía factores de riesgo que se han relacionado con esta complicación, como el sexo femenino (ORa: 1.68) y el HIV (ORa: 1.87), según un modelo predictivo recientemente publicado con un área bajo la curva de 0.65 (sensibilidad 0.70, especificidad 0.53, índice de Youden 0.23).⁶ Aunque no conocemos modelos predictivos para ICT.

En cuanto al tratamiento de VC e ICT, se han descrito pocos estudios al respecto. Algunos informes de caso sugieren el manejo invasivo por encima del manejo médico. Por ejemplo, se describieron

dos casos que recibieron tratamiento intraarterial farmacológico (con verapamilo) y mecánico (con balón), con respuesta angiográfica favorable en pacientes en quienes las medidas de hipertensión inducida no habían funcionado. Sin embargo, solo se describió una respuesta clínica favorable en uno de estos casos.⁷ Por otro lado, se reportó un caso de ICT y VC después de HIV primaria que se manejó con terapia intraarterial farmacológica (con verapamilo y milrinona) en dos momentos de neurodeterioro y VC, con éxito angiográfico y clínico inmediato, aunque no se describió hipertensión inducida.⁸

En el caso de nuestra paciente, recibió hipertensión inducida durante varios días sin mejoría clínica, pero no se sometió a un tratamiento invasivo, y después de varios días, mejoró de manera espontánea. No parece razonable someter a hipertensión inducida a pacientes con MAV rota y reparada, debido al riesgo teórico de los fenómenos de edema/hemorragia con presión de perfusión normal, conocido como el fenómeno de ruptura de la presión de perfusión normal. Se ha reportado que incluso mantener una hipotensión moderada podría no ser suficiente para evitar este fenómeno, y que la hemodinamia cerebral alterada puede persistir más allá de las seis semanas.¹⁰

Este informe de caso presenta una limitación significativa, ya que no se realizó un estudio de angiografía o angiotomografía cerebral para confirmar la presencia de VC, tal como se ha observado en otros informes previos. Además, es relevante destacar que nuestra institución aún no cuenta con protocolos claros para abordar escenarios de baja incidencia como el presente.

La progresión hacia isquemia cerebral tardía (ICT) posterior a la rotura de una MAV cerebral tiene un valor predictivo destacado en términos de mortalidad y pronóstico desfavorable al momento del alta. Por lo tanto, es fundamental prestar una atención especial al monitoreo de aquellos pacientes con factores de riesgo asociados a dicha progresión. Afortunadamente, en el caso de nuestra paciente, no se presentó esta complicación, evidenciando una evolución clínica favorable.

Conclusión

Este caso resalta la importancia de monitorear la isquemia cerebral tardía en pacientes con MAV rotas, especialmente en aquellos con factores de riesgo como el sexo femenino y la hemorragia intraventricular (HIV). Aunque no se realizaron estudios de imagen para confirmar vasoespasmo, la evolución clínica favorable de la paciente subraya la necesidad de protocolos claros y destaca el valor predictivo de la isquemia cerebral tardía en el pronóstico. Este caso abre la discusión sobre las mejores estrategias terapéuticas en estos escenarios.

Financiamiento

El estudio no contó con financiamiento.

Conflictos de interés

Ninguno declarado por los autores.

Correspondencia:

Johann Bill Pinedo Ávila
Jr. Daniel Hernández 727,
Pueblo Libre, Lima - Perú.

E-mail: johannbillpinedoavila@gmail.com

Bibliografía

1. de Oliveira Manoel AL, van der Jagt M, Amin-Hanjani S, Bambakidis NC, Brophy GM, Bulsara K, et al. Common Data Elements for Unruptured Intracranial Aneurysms and Aneurysmal Subarachnoid Hemorrhage: Recommendations from the Working Group on Hospital Course and Acute Therapies—Proposal of a Multidisciplinary Research Group. *Neurocrit Care*. 2019 Jun 16;30(1):36–45. doi: 10.1007/S12028-019-00726-3/METRICS.
2. Neifert SN, Chapman EK, Martini ML, Shuman WH, Schupper AJ, Oermann EK, et al. Aneurysmal Subarachnoid Hemorrhage: the Last Decade. *Transl Stroke Res*. 2021 Jun 19;12(3):428–46. doi: 10.1007/s12975-020-00867-0.
3. Gross BA, Du R. Vasospasm After Arteriovenous Malformation Rupture. *World Neurosurg*. 2012 Sep 1;78(3-4):300–5. doi: 10.1016/j.wneu.2011.12.090.
4. Dinc N, Won SY, Eibach M, Quick-Weller J, Konczalla J, Berkefeld J, et al. Cerebral Vasospasm Due to Arteriovenous Malformation-Associated Hemorrhage: Impact of Bleeding Source and Pattern. *Cerebrovasc Dis*. 2019 Jul 3;47(3-4):165–70. doi: 10.1159/000500596.
5. Amuluru K, Al-Mufti F, Romero CE, Gandhi CD. Isolated Intraventricular Hemorrhage Associated with Cerebral Vasospasm and Delayed Cerebral Ischemia following Arteriovenous Malformation Rupture. *Interv Neurol*. 2018 Oct 1;7(6):479–89. doi: 10.1159/000490583.
6. Dicipinigaitis AJ, Feldstein E, Shapiro SD, Kamal H, Bauerschmidt A, Rosenberg J, et al. Cerebral vasospasm following arteriovenous malformation rupture: a population-based cross-sectional study. *Neurosurg Focus*. 2022 Jul;53(1):E15. doi: 10.3171/2022.4.FOCUS2277.
7. Fluss R, Laarakker A, Nakhla J, Brook A, Altschul D. Prolonged delayed vasospasm in the setting of nonaneurysmal intraventricular hemorrhage. *Surg Neurol Int*. 2019 Jan 1;10(1):29. doi: 10.4103/sni.sni_396_18.
8. Delora A, Ezzeldin R, Alderazi Y, Le D, Ezzeldin M. A Rare Case of Cerebral Vasospasm Secondary to Primary Intraventricular Hemorrhage With an Immediate Improvement in Neurological Status Following Intra-arterial Therapy. *Cureus*. 2022 Jun 6;14(6):e25697. doi: 10.7759/cureus.25697.
9. Yokobori S, Watanabe A, Nakae R, Onda H, Fuse A, Kushimoto S, et al. Cerebral Vasospasms After Intraventricular Hemorrhage From an Arteriovenous Malformation -Case Report-. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2010 Apr 25;50(4):320–3. doi: 10.2176/nmc.50.320.
10. Gutiérrez-González R, Gil A, Serna C, López-Ibor L, Boto GR. Normal perfusion pressure breakthrough phenomenon: what still remains unknown. *Br J Neurosurg*. 2012 Jun 21;26(3):403–5. doi: 10.3109/02688697.2011.633637.