

Hemangioma cavernoso de la cauda equina: reporte de caso

Cavernous hemangioma of the
cauda equina: A case report

Soledad Heredia-Gutiérrez^{1a}, María Eugenia Carbarín-Carbarín^{2b}, Antonio Heredia-Gutiérrez^{3c}

Resumen

Introducción: los hemangiomas cavernosos son malformaciones vasculares formadas por grupos de sinusoides dilatados, organizadas en canales con una sola capa de endotelio. Los hemangiomas cavernosos representan el 3% de todas las lesiones intradurales y de estas, un 5-12% corresponden a lesiones de la médula espinal, Los de la cauda equina son poco frecuentes.

Caso clínico: hombre de 57 años, sin antecedente de radioterapia, presentó dolor en la región lumbar y contractura de la musculatura dorsal y paraespinal desde hacía seis meses, evaluado en otro hospital y diagnosticado con una herniación discal lumbar. Fue manejado con analgésicos y fisioterapia durante dos meses, sin embargo, fracasó la terapéutica y la sintomatología empeoró. Presentó disestesias en la región glútea y perianal, y reducción de la fuerza en ambas piernas, así como afección de esfínter vesical. Se le realizó una resonancia magnética simple de la columna lumbosacra, evidenciando una lesión intrarraquídea e intradural a nivel L1-2. Fue diagnosticado con síndrome de cauda equina y se llevó a cabo cirugía. Posterior a la cirugía, el paciente presentó mejoría clínica y resolución de los síntomas. En el seguimiento en consulta externa, el paciente logró deambular de forma independiente y actualmente se encuentra asintomático. El resultado de anatomía patológica reportó un hemangioma cavernoso.

Conclusiones: los hemangiomas cavernosos de la cauda equina son raros y cuando se asocian a un síndrome de la cauda equina la cirugía temprana se recomienda como el tratamiento de primera elección para evitar un daño neurológico permanente.

Abstract

Background: Cavernous hemangiomas are vascular malformations formed by groups of dilated sinusoids, organized in channels with a single layer of endothelium. Cavernous hemangiomas represent only 3% of all intradural lesions, and of these 5-12 % correspond to spinal cord lesions and those of the cauda equina are rare.

Clinical case: A 57 years-old male patient is presented, without history of radiotherapy, who showed low back pain and contracture of the dorsal and paraspinal muscle during 6 months, evaluated in another hospital and diagnosed with a lumbar disc herniation, he was managed with analgesics and physiotherapy for two months, however the therapy failed, the symptoms worsened and dysesthesias appeared in the gluteal and perianal region, with reduction of strength in both legs with predominance in the left leg, as well bladder sphincter dysfunction. A simple magnetic resonance imaging of the lumbosacral spine was performed, revealing an intraspinal and intradural lesion at the L1-2 level. He was diagnosed with cauda equina syndrome and surgery was carried out. After surgery the patient presented clinical improvement and resolution of symptoms. During follow-up in the outpatient clinic, one month after surgery, the patient was able to walk independently and is currently asymptomatic. The pathological anatomy result reported a cavernous hemangioma.

Conclusions: Cavernous hemangiomas of the cauda equina are rare, and when they are associated with a cauda equina syndrome, early surgery is recommended like the first option treatment to avoid permanent neurological injury.

¹Fomento Económico Mexicano, Clínica de Salud Ocupacional y Bienestar, Servicio de Medicina Laboral. León, Guanajuato, México

²Instituto Mexicano del Seguro Social, Hospital General de Zona No. 20, Servicio de Terapia Intensiva Pediátrica. Puebla, México

³Instituto Mexicano del Seguro Social, Hospital de Especialidades "Manuel Ávila Camacho", Servicio de Neurocirugía. Puebla, Puebla, México

ORCID: [0009-0005-1296-1786^a](https://orcid.org/0009-0005-1296-1786), [0000-0002-6864-5396^b](https://orcid.org/0000-0002-6864-5396), [0000-0003-0116-8676^c](https://orcid.org/0000-0003-0116-8676)

Palabras clave

Cauda Equina
Hemangioma Cavernoso
Nervios Espinales
Dolor de la Región Lumbar

Keywords

Cauda Equina
Hemangioma, Cavernous
Spinal Nerves
Low Back Pain

Fecha de recibido: 06/10/2023

Fecha de aceptado: 15/02/2024

Comunicación con:

Antonio Heredia Gutiérrez

 antonhered@yahoo.com

 22 2242 4520, extensión 212

Cómo citar este artículo: Heredia-Gutiérrez S, Carbarín-Carbarín ME, Heredia-Gutiérrez A. Hemangioma cavernoso de la cauda equina: reporte de caso. Rev Med Inst Mex Seguro Soc. 2024;62(4):e5732. doi: 10.5281/zenodo.11397229

Introducción

La cauda equina se define como el conjunto de raíces nerviosas que descienden debajo del cono medular y viajan a través del conducto raquídeo hasta llegar al sacro.¹ Los hemangiomas cavernosos, también conocidos como: cavernomas, angiomas cavernosos, angiomas venosos o malformaciones cavernomatosas, son malformaciones vasculares formadas por grupos de sinusoides dilatados, organizadas en canales con una sola capa de endotelio. Los hemangiomas cavernosos representan solamente el 3% de todas las lesiones intradurales y de estas, un 5-12% corresponden a lesiones de la médula espinal, siendo los de la cauda equina poco frecuentes.² Los hemangiomas cavernosos de la cauda equina son muy raros, únicamente han sido publicados 32 casos *de novo*, no relacionados con radioterapia. En este trabajo se presenta el caso de un paciente hombre adulto, sin antecedente de radioterapia, quien debuta con un síndrome de la cauda equina asociado a un hemangioma cavernoso, y se describe su padecimiento médico, así como la terapéutica utilizada, también se hace un análisis de los casos publicados en la literatura médica.

Caso clínico

Se trata de un paciente hombre de 57 años de edad, quien presentaba dolor en la región lumbar y contractura de la musculatura dorsal y paraespinal desde hacía seis meses, inicialmente fue evaluado en otro hospital y diagnosticado con una herniación discal lumbar, fue manejado con analgésicos y fisioterapia durante dos meses. Sin embargo, a pesar del tratamiento, la sintomatología empeoró y aparecieron disestesias en la región glútea y perianal, y reducción de la fuerza en ambas piernas, con predominio en la pierna izquierda. Se realizó una resonancia magnética simple de la columna lumbosacra, evidenciando una lesión intrarraquídea e intradural, que comprimía la cauda equina en el corte coronal y axial, y en el corte sagital parecía depender del cono medular, considerando una probable tumoración a nivel L1-2; por lo que, con base en los hallazgos de imagen, fue enviado a nuestro hospital para tratamiento (figuras 1, 2 y 3).

Al llegar a admisión hospitalaria se encontró al paciente con dolor lumbar bilateral, incontinencia del esfínter vesical, con preservación del esfínter anal, y, durante la examinación de extremidades inferiores, se identificó una fuerza 2/5 en la pierna izquierda y 4/5 en la pierna derecha, además de disminución del reflejo patelar derecho y ausencia del reflejo patelar izquierdo, así como ausencia bilateral del reflejo aquiliano e incapacidad para deambular por parte del paciente. Ante la afección clínica y los hallazgos por imagen se decidió prescindir de la resonancia magnética contrastada para no retardar el tratamiento y evitar una mayor afec-

ción neurológica, realizando un diagnóstico de síndrome de la cauda equina asociado a tumoración, por lo que se llevó a cabo manejo neuroquirúrgico inmediato.

Cirugía: se llevó a cabo bajo anestesia general y sin relajante muscular, con el paciente en posición prono, mediante un abordaje lumbar posterior, realizando laminotomías en L1-L2 y durotomía en línea media, se expusieron las raíces nerviosas y se identificó una lesión color café oscuro-violácea que comprimía las raíces nerviosas (figura 4). La lesión fue disecada y se detectó que emergía de una raíz nerviosa, se aplicó electroestimulación a la raíz nerviosa que daba origen a la lesión y al no evocar respuesta motora, se decidió sacrificar la raíz nerviosa, logrando una resección total de la lesión. Se corroboró hemostasia y se realizó un cierre hermético de la duramadre, se recolocaron las láminas vertebrales de L1-L2 y se fijaron con suturas no absorbibles, se realizó ligamentoplastia interespinosa y se procedió al cierre de la herida quirúrgica por planos anatómicos. Al día posterior a la cirugía, el paciente refirió control del esfínter vesical y ausencia de dolor en las extremidades inferiores, región glútea y perianal. Se decidió dar de alta al segundo día del posoperatorio y se envió a fisioterapia a las dos semanas de la cirugía. En el seguimiento en la consulta externa, un mes después de la cirugía, el paciente logró deambular de forma independiente y actualmente se encuentra asintomático. El resultado de anatomía patológica reportó un hemangioma cavernoso.

Discusión

Los hemangiomas cavernosos del sistema nervioso pueden ser *de novo* y también se han asociado con la exposición a la radiación y/o secundarios a radioterapia, pudiendo desarrollarse con una dosis promedio de 50 Gy y pueden aparecer hasta nueve años después del tratamiento con radioterapia.^{3,4} Existe una predisposición genética para desarrollar hemangiomas cavernosos *de novo* en la pobla-



Figura 1 Resonancia magnética de la columna lumbosacra en corte sagital en secuencia T2, mostrando una lesión heterogénea en L1-2



Figura 2 Resonancia magnética de la columna lumbosacra en corte coronal en secuencia T2, mostrando el cono medular y el filum terminale desplazados hacia la derecha por la lesión

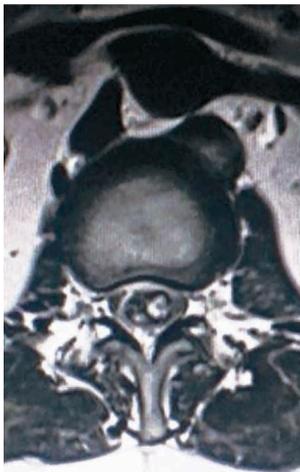


Figura 3 Resonancia magnética de la columna lumbosacra en corte axial en secuencia T2 a nivel de L1, evidenciando compresión de las raíces nerviosas de predominio del lado izquierdo

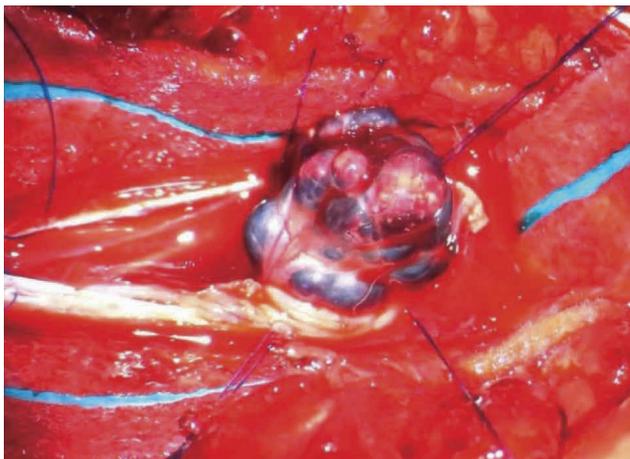


Figura 4 Fotografía intraoperatoria. Lesión color café-violáceo, multilobulada, adherida a las raíces nerviosas

ción hispana y caucásica, se han identificado mutaciones en los genes KRIT1 (CCM1), MGC4607 (CCM2) y PDCD10 (CCM3).⁵ Hong *et al.*⁶ identificaron una mutación en los genes MAP3K3 y PIK3CA en la población china. Han sido propuestos sitios de origen de los hemangiomas cavernosos en la cauda equina, emergiendo del tejido vascular subpial radicular,⁷ de los vasos sanguíneos superficiales de la raíz nerviosa y los microvasos intrarradiculares.⁸ Cuando llegan a sangrar los hemangiomas cavernosos se asocian a manifestaciones clínicas y cuando aparecen los síntomas se recomienda su tratamiento mediante cirugía.^{9,10} En el cuadro I y cuadro II, se resumen los datos clínicos de los pacientes operados de hemangiomas cavernosos de la cauda equina que han sido publicados en la literatura. Analizando los 32 casos reportados, incluyendo el presente caso, identificamos que existe una edad promedio de 45.54 años (rango 13-77 años), con predominio en hombres $n = 21$ (63.63%) [mujeres $n = 12$ (36.36%)]. Por zona lumbar se encuentra la siguiente distribución: 7 en L1-2 (21.21%), 5 en L4 (15.15%), 4 en L2 (12.12%), 4 en L2-3 (12.12%), 4 en L3 (12.12%), 4 en L3-4 (12.12%), 3 en L1 (9%), 1 en L5 (3%) y 1 en L1-3 (3%). Por nivel vertebral: 17 (51.51%) un nivel, 15 (45.45%) dos niveles y 1 (3%) tres niveles.

El predominio de los síntomas fue dolor en la región lumbar en 23 casos (69.69%), dolor de piernas en 19 casos (57.57%), afección motora-sensitiva (debilidad, entumecimiento, disestesias) en 12 casos (36.36%), hemorragia subaracnoidea (cefalea y rigidez en el cuello) en 8 casos (24.24%), afección de esfínteres en 6 casos (18.18%) e hidrocefalia en 1 caso (3%). En 14 casos (42.42%) el hemangioma cavernoso emergía de una raíz nerviosa y fue necesario sacrificar la raíz nerviosa para remover la lesión. Solamente se ha reportado un caso en la población pediátrica.¹⁵

Si bien en los casos publicados existe un predominio en la población asiática, esto se podría explicar debido al mayor número de habitantes en dicha región, en comparación con la población del resto de los países que reportan hemangiomas cavernosos de la cauda equina. El diagnóstico se debe sospechar basándose en la sintomatología clínica y se refuerza con una resonancia magnética contrastada de la columna lumbosacra.¹⁹ El diagnóstico diferencial clínicamente es con una herniación discal intervertebral a nivel lumbosacro, y por estudios de imagen es con un *schwannoma*, neurofibroma, ependimoma, meningioma y metástasis (carcinoma de próstata, ovario, pulmón). Además, el diagnóstico debe ser corroborado mediante histopatología, ya que los hemangiomas cavernosos fuera del parénquima encefálico y medular son infrecuentes.²⁰ La principal limitación de nuestro trabajo fue no contar con suficiente bibliografía del tratamiento utilizado en los hemangiomas cavernosos de cauda equina, debido a la infrecuencia de esta patología y, probablemente, a que

Cuadro I Pacientes operados de hemangioma cavernoso de la cauda equina sin resección de la raíz nerviosa reportados en la literatura

Autor/año	Edad/Sexo	Nivel	Sintomatología	País
Ueda <i>et al.</i> , 1987 ¹¹	28/M	L1-2	HSA,DRL	Japón
Ramos <i>et al.</i> , 1990 ¹¹	67/F	L3	Hidrocefalia	Francia
Bruni <i>et al.</i> , 1994 ¹¹	28/M	L2	HSA	Italia
Cervoni <i>et al.</i> , 1995 ¹¹	26/F	L1-2	HSA	Italia
Cervoni <i>et al.</i> , 1995 ¹¹	32/M	L5	Dolor	Italia
Rao <i>et al.</i> , 1997 ¹¹	60/M	L1-3	Déficit motor	India
Duke <i>et al.</i> , 1998 ¹¹	49/F	L4	DRL, déficit sensitivo, DE	EUA
Caroli <i>et al.</i> , 2007 ⁸	71/M	L4	DRL, déficit sensitivo	Italia
Khalatbari <i>et al.</i> , 2011 ¹²	45/M	L1-2	DRL,DE	Irán
Nie <i>et al.</i> , 2012 ⁷	57/M	L1	DRL, dolor de piernas	China
Popescu <i>et al.</i> , 2013 ¹¹	60/M	L4	DRL	Rumanía
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	31/F	L2-3	HSA,DRL y pierna derecha	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	28/F	L1-2	HSA, DRL y piernas	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	27/M	L2	DRL, DE	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	23/M	L1-2	HSA, DRL y piernas	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	49/F	L2-3	Dolor pierna derecha, DE	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	51/F	L1-2	DRL y pierna derecha	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	42/F	L2-3	Dolor de piernas	China
Kumar <i>et al.</i> , 2017 ¹³	21/F	L3-4	DRL y pierna izquierda	India

HSA: hemorragia subaracnoidea; DRL: dolor en la región lumbar; DE: disfunción de esfínteres

Cuadro II Pacientes operados de hemangioma cavernoso de la cauda equina con resección de la raíz nerviosa reportados en la literatura

Autor/año	Edad/Sexo	Nivel	Sintomatología	País
Falavigna <i>et al.</i> , 2004 ¹¹	44/F	L3-4	DRL, déficit sensitivo, DE	Brasil
Miyake <i>et al.</i> , 2007 ¹¹	18/M	L1	DRL y piernas	Japón
Cecchi <i>et al.</i> , 2007 ¹¹	75/F	L3-4	Déficit sensitivo	Italia
Chun <i>et al.</i> , 2010 ¹¹	74/M	L4	DRL	Corea
Khalatbari <i>et al.</i> , 2011 ¹²	58/M	L3-4	DRL y pierna izquierda	Irán
Takeshima <i>et al.</i> , 2014 ¹⁴	44/M	L2-3	DRL y piernas	Japón
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	42/M	L3	DRL y piernas	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	32/M	L2	DRL y pierna derecha	China
Yang <i>et al.</i> , 2014 ¹¹	59/M	L3	DRL y pierna izquierda	China
Yaltirik <i>et al.</i> , 2016 ¹⁵	13/F	L1	DRL y pierna derecha	Turquía
Golnari <i>et al.</i> , 2017 ¹⁶	60/M	L2	HSA,DRL	EUA
Apostolakis <i>et al.</i> , 2018 ¹⁷	77/M	L3	DRL	Grecia
Naleer <i>et al.</i> , 2023 ¹⁸	54/M	L4	DRL	India
Presente caso, 2023	57/M	L1-2	DRL y piernas, DE	México

HSA: hemorragia subaracnoidea; DRL: dolor en la región lumbar; DE: disfunción de esfínteres

tampoco es dada a conocer por los médicos que llegan a atender esta enfermedad.

Conclusiones

Los hemangiomas cavernosos de la cauda equina son raros y cuando se asocian a un síndrome de la cauda equina se recomienda la cirugía temprana como el tratamiento de primera elección para evitar un daño neurológico permanente.

Agradecimientos

A nuestros pacientes y sus familiares, por motivarnos a ser cada día mejores.

Declaración de conflicto de interés: los autores han completado y enviado la forma traducida al español de la declaración de conflictos potenciales de interés del Comité Internacional de Editores de Revistas Médicas, y no fue reportado alguno relacionado con este artículo.

Referencias

1. Ridley LJ, Han J, Ridley WE et al. Cauda equina: Normal anatomy. *J Med Imaging Radiat Oncol.* 2018;62 Suppl 1:123. doi: 10.1111/1754-9485.04_12786
2. Vicenty JC, Fernandez-de Thomas RJ, Estronza S et al. Cavernous Malformation of a Thoracic Spinal Nerve Root: Case Report and Review of Literature. *Asian J Neurosurg.* 2019;14(3):1033-1036. doi: 10.4103/ajns.AJNS_249_18
3. Patet G, Bartuli A, Meling TR et al. Natural history and treatment options of radiation-induced brain cavernomas: a systematic review. *Neurosurg Rev.* 2022;45(1):243-251. doi: 10.1007/s10143-021-01598-y
4. Koester SW, Scherschinski L, Srinivasan VM et al. Radiation-induced cavernous malformations in the spine: patient series. *J Neurosurg Case Lessons.* 2023;5(23). doi: 10.3171/CASE22482
5. Riolo G, Ricci C, Battistini S. Molecular Genetic Features of Cerebral Cavernous Malformations (CCM) Patients: An Overall View from Genes to Endothelial Cells. *Cells.* 2021;10(3):704. doi: 10.3390/cells10030704
6. Hong T, Xiao X, Ren J, et al. Somatic MAP3K3 and PIK3CA mutations in sporadic cerebral and spinal cord cavernous malformations. *Brain.* 2021;144(9):2648-2658. doi: 10.1093/brain/awab117
7. Nie QB, Chen Z, Jian FZ et al. Cavernous angioma of the cauda equina: a case report and systematic review of the literature. *J Int Med Res.* 2012;40(5):2001-2008. doi: 10.1177/030006051204000542
8. Caroli E, Acqui M, Trasimeni G et al. A case of intraroot cauda equina cavernous angioma: clinical considerations. *Spinal Cord.* 2007;45(4):318-321. doi: 10.1038/sj.sc.3101964
9. Albalkhi I, Shafqat A, Bin-Alamer O et al. Long-term functional outcomes and complications of microsurgical resection of brainstem cavernous malformations: a systematic review and meta-analysis. *Neurosurg Rev.* 2023;46(1):252. doi: 10.1007/s10143-023-02152-8
10. Liao D, Wang R, Shan B et al. Surgical outcomes of spinal cavernous malformations: A retrospective study of 98 patients. *Front Surg.* 2023;9:1075276. doi: 10.3389/fsurg.2022.1075276
11. Yang T, Wu L, Yang C et al. Cavernous angiomas of the cauda equina: clinical characteristics and surgical outcomes. *Neurol Med Chir (Tokyo).* 2014;54(11):914-923. doi: 10.2176/nmc.0a.2014-0115
12. Khalatbari MR, Hamidi M, Moharamzad Y et al. Cauda equina cavernous angioma presenting as acute low back pain and sciatica. A report of two cases and literature review. *Neuroradiol J.* 2011;24(4):636-642. doi: 10.1177/197140091102400421
13. Kumar V, Nair R, Kongwad L et al. Cavernous haemangioma of the cauda region: case report and review of literature. *Br J Neurosurg.* 2017;31(5):614-615. doi: 10.1080/02688697.2016.1199784
14. Takeshima Y, Marutani A, Tamura K et al. A case of cauda equina cavernous angioma coexisting with multiple cerebral cavernous angiomas. *Br J Neurosurg.* 2014;28(4):544-546. doi: 10.3109/02688697.2013.841856
15. Yaltirik K, Özdoğan S, Doğan Ekici I et al. Cauda equina cavernous hemangioma: very rare pediatric case. *Childs Nerv Syst.* 2016;32(12):2289-2291. doi: 10.1007/s00381-016-3286-9
16. Golnari P, Ansari SA, Shaibani A et al. Intradural extramedullary cavernous malformation with extensive superficial siderosis of the neuraxis: Case report and review of literature. *Surg Neurol Int.* 2017;8:109. doi: 10.4103/sni.sni_103_17
17. Apostolakis S, Mitropoulos A, Diamantopoulou K et al. Cavernoma of the cauda equina. *Surg Neurol Int.* 2018;9:174. doi: 10.4103/sni.sni_212_18
18. Naleer H, Manivel M, Bathala R et al. Lumbar spinal nerve root cavernoma: A rare cause of Intradural extramedullary lesion—Case report. *Interdisciplinary Neurosurgery* 32 (2023): 101737. doi: 10.1016/j.inat.2023.101737
19. Hart BL, Mabray MC, Morrison L et al. Systemic and CNS manifestations of inherited cerebrovascular malformations. *Clin Imaging.* 2021;75:55-66. doi: 10.1016/j.clinimag.2021.01.020
20. Bennett SJ, Katzman GL, Roos RP et al. Neoplastic cauda equina syndrome: a neuroimaging-based review. *Pract Neurol.* 2016;16(1):35-41. doi: 10.1136/practneurol-2015-001236