

Abordaje endoscópico nasal de meningocele de rinofaringe en recién nacida prematura

Nasal endoscopic approach of rhinopharyngeal meningocele in a premature newborn

Ana Moreno Valor • Mikel García Martín • Ignacio Toribio Cuesta • Carlos Montero García

RESUMEN

El meningocele congénito transesfenoidal es una condición rara y poco estudiada. Presentamos el caso de una paciente prematura y de bajo peso que desde el nacimiento presenta clínica respiratoria y mala tolerancia oral. Durante su estudio, en una prueba de imagen se identifica un meningocele transesfenoidal que ocupa rinofaringe; Ante este hallazgo y la mala evolución clínica, decidimos intervenir quirúrgicamente a la paciente. Pese a que en la bibliografía revisada no se reportan casos tratados quirúrgicamente de menos de 3 meses de edad y que el abordaje endoscópico puede ser muy complicado por sus limitaciones anatómicas, nos decidimos por un abordaje endonasal endoscópico con éxito y buena evolución posterior.

Palabras clave: meningocele, abordaje endoscópico

ABSTRACT

The transsphenoidal congenital meningocele is an unusual condition and there is little published about its proper workup. We report the case of a female, premature, and underweight patient who developed respiratory symptoms and poor oral tolerance since the birth date. During the study phase, a transsphenoidal meningocele in the rhinopharynx was identified through a radiological test. Given this finding and the poor clinical evolution, we opted for a surgical approach. Despite the lack of published literature of surgically-managed congenital meningocele in patients under 3 months and the expected anatomical limitations due to the young age of the patient, the endoscopic endonasal approach proved to be successful. Following medical examinations showed a positive evolution.

Keywords: meningocele, endoscopic surgical procedure.

INTRODUCCIÓN

Encefalocele es la herniación del encéfalo y meninges que lo recubren a través de un defecto óseo craneal. En los meningoceles el saco herniado está compuesto por un saco meníngeo que contiene LCR. La incidencia es de 1 en 4000-5000 recién nacidos vivos¹.

DESCRIPCIÓN CASO CLÍNICO

Recién nacida prematura (31+1semana) de 1.524g, sin antecedentes prenatales ni familiares, que al nacimiento presenta distrés respiratorio, tiraje costal y mala tolerancia oral. Al nacer se realiza sondaje nasal habitual que resulta permeable, precisando colocación de ventilación positiva de alto flujo y descartándose patología pulmonar mediante pruebas radiológicas.

Dada la evolución desfavorable, se solicita valoración al servicio de otorrinolaringología que explora vía aérea en quirófano introduciendo el endoscopio a través de mascarilla laríngea (sin explorarse fosas nasales) visualizándose un edema inespecífico y organizado en supraglotis de origen desconocido. Decidiéndose estabilizar la vía aérea mediante traqueostomía a los 39 días de vida y 2.380 gramos de peso. La paciente continúa con pausas de apnea e hipomotilidad transitoria que motivan a solicitar resonancia magnética (RMN) cerebral y de hipófisis, visualizándose una silla turca con discontinuidad en su suelo que conecta

Ana Moreno Valor

Médico interno residente del Hospital Perpetuo Socorro, Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz, España

Mikel García Martín

Médico interno residente del Hospital Perpetuo Socorro, Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz, España

Ignacio Toribio Cuesta

Médico interno residente del Hospital Perpetuo Socorro, Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz, España

Carlos Montero García

Médico adjunto del servicio de Otorrinolaringología del Hospital Perpetuo Socorro, Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz, España

Correspondencia

Ana Moreno Valor
anamvalor@gmail.com

Artigo recebido a 7 de Junho de 2020. Aceite para publicação a 9 de Novembro de 2020.

con una imagen quística de 19mm de diámetro que ocupa rinofaringe (Imagen 1). Se completa estudio con tomografía computarizada (TC) craneal, identificándose un defecto en el suelo del hueso esfenoides de 2mm (Imagen 2).

Se solicita estudio oftalmológico para descartar posibles alteraciones o malformaciones oculares asociadas. Con sospecha de meningocele, se decide intervenir quirúrgicamente con 72 días de vida (Edad corregida:

IMAGEN 1

RMN cerebral: Silla turca en cono invertido con discontinuidad en el suelo de la misma que conecta con imagen quística de 18-19mm de diámetro que ocupa rinofaringe desplazando caudal y anteriormente al paladar blando.

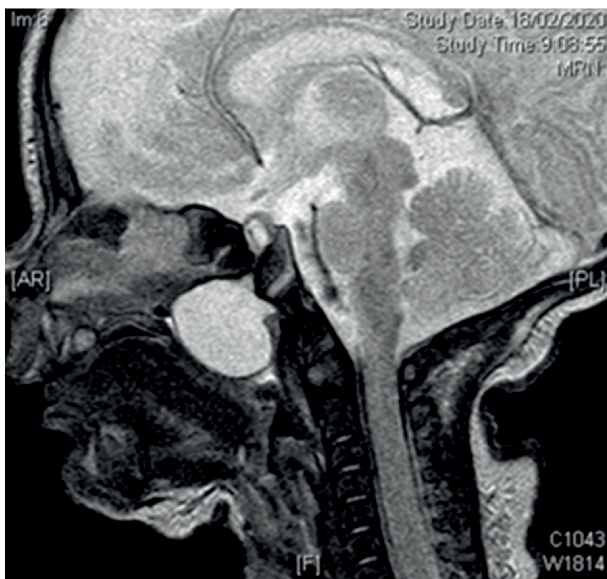


IMAGEN 2

TC craneal: Se visualiza un defecto en suelo del hueso esfenoides de aproximadamente 2 mm de diámetro.

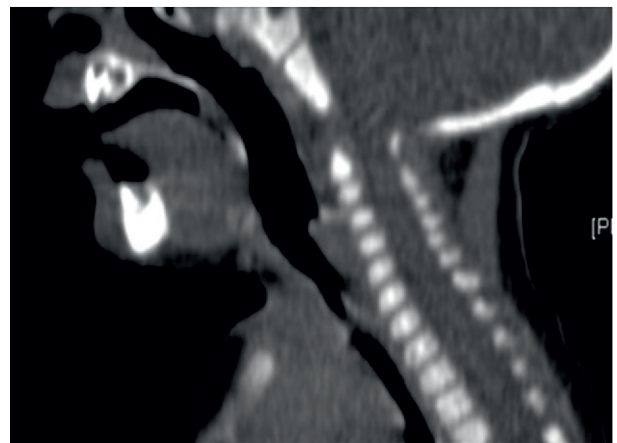


41+3 semanas) y 3.365g de peso, mediante abordaje endonasal endoscópico extirpando el meningocele sin apreciarse salida de líquido cefalorraquídeo (LCR) a través del conducto procediéndose al sellado del defecto con la creación de dos colgajos mini HADAD y sin precisar drenaje lumbar. De manera que, aunque contamos con la presencia de neurocirugía por si hubiera fístula de LCR para su cierre y colocación de drenaje, no precisamos su apoyo. Destacar la dificultad del abordaje ante unas limitaciones anatómicas que complican el manejo endoscópico, precisando adaptar el material quirúrgico (hemostático y de corte) ante las dificultades que el tamaño de la paciente ofrece. Resaltar que si no hubiera sido exitosa la cirugía mediante el abordaje endoscópico, se hubiera procedido a un abordaje vía oral.

Al mes, presenta mejoría ventilatoria progresiva, correcta tolerancia oral y decanulación de traqueostomía, observándose ausencia de recaída en la endoscopia nasal y en la TC de control. (Imagen 3)

IMAGEN 3

TC de control a los 46 días tras la intervención quirúrgica: No se evidencia recidiva de meningocele.



DISCUSIÓN

Los meningoencefalocelos pueden clasificarse según el origen en congénito, adquirido o iatrogénico⁵, representando menos del 5% de los casos el de tipo congénito transesfenoidal^{2,3}.

El transesfenoidal suele ser asintomático o encontrarse como hallazgo casual en un estudio de imagen, como ocurrió en nuestro caso, donde la permeabilidad en el sondaje nasal hizo que el meningocele pasara desapercibido y no lo identificáramos hasta realizarse la RMN cerebral. Puede asociarse con anomalías en el desarrollo de la cara, sistema óptico y encéfalo².

La forma de manifestarse dependerá de la edad del paciente². En recién nacidos y niños, se describen casos que debutan como obstrucción unilateral nasal⁴ o como dificultad respiratoria y en la deglución oral que puede conllevar la realización de traqueostomía²,

como sucede en nuestro caso. En esta edad podemos encontrar cambios faciales de la línea media: paladar hendido, disfunción hipofisaria o neoplasias, como craneofaringiomas⁶. En adolescentes y adultos, puede debutar con rinoliquorrea, meningitis o defecto visual progresivo². Las pruebas de imagen son imprescindibles ante el hallazgo de una masa nasal, utilizando la RMN para evaluar los componentes del saco y la TC para evaluar el defecto de la base de cráneo. La angiografía digital o por RMN puede realizarse si la RMN sugiere afectación de las arterias cerebrales anteriores². Otros autores afirman que en niños debe restringirse la TC siendo la RMN suficiente⁴. Por otro lado, la presencia de rinoliquorrea, convierte el uso combinado de fluoresceína y endoscopia nasal, en la técnica diagnóstica principal para localizar el defecto, presentando una sensibilidad del 96% y especificidad del 95% si se asocia RM-cisternografía y TC⁵.

El diagnóstico diferencial del meningoencefalocele de cavidad nasal es principalmente con poliposis y tumores de base de cráneo anterior^{7,8}.

Debido al alto riesgo de complicaciones (meningitis, neuromoéfalos y abscesos cerebrales), requiere cirugía precoz⁵. Por ello, aunque en la bibliografía revisada no consten pacientes tratados quirúrgicamente de edad inferior a los 3 meses⁹, el bajo peso y el límite mínimo de edad no condicionó el tratamiento quirúrgico en nuestro caso, especialmente ante una vía aérea inestable pese a la realización de traqueostomía.

La técnica quirúrgica y vía de abordaje empleadas, deben permitir la reconstrucción del defecto y control de las posibles complicaciones, teniendo en cuenta el posible prolapso de la arteria carótida en el saco herniario, provocando un falso aneurisma y hemorragia intraventricular⁸.

El acceso transcraneal para el meningoencefalocele transesfenoidal es controvertido, especialmente en niños, pudiendo asociarse con disfunción hipotalámica y mayor morbimortalidad², no obstante, existen casos donde el uso combinado del abordaje transcraneal/endonasal genera buenos resultados³. También se han descrito abordajes transpalatinos con éxito y buena evolución posterior². Por otra parte, el abordaje endoscópico endonasal en edad pediátrica, puede tener ciertas limitaciones debido a condicionantes anatómicos de la fosa nasal, cornetes mal definidos, retraso en el desarrollo de senos paranasales, estrecha distancia intercarotídea y por la posible falta de material quirúrgico adecuado a la edad³. No obstante, varios autores han demostrado que el abordaje endoscópico para lesiones selares puede mejorar la calidad del curso postoperatorio en niños en comparación al abordaje sublabial, existiendo publicaciones que describen un buen resultado y que han servido de guía para nuestro caso³. Para el sellado del defecto de base de cráneo pueden emplearse injertos de tejido adiposo, fascia temporal, cartílago septal...⁵ Varios autores

han demostrado que el colgajo nasoseptal da buenos resultados pero puede ser difícil de realizar en población pediátrica^{1,5}.

CONCLUSIÓN

En nuestro caso, el abordaje endoscópico endonasal ha sido una técnica segura, efectiva y mínimamente invasiva para tratar el meningocele transesfenoidal; permitiendo la resección del saco herniado y la reparación del defecto de duramadre y base de cráneo, como ya han descrito otros autores en pacientes de mayor edad⁹.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no tienen ningún conflicto de intereses en relación con este artículo.

Confidencialidad de los datos

Los autores declaran que siguieron los protocolos de su trabajo en la publicación de los datos de pacientes.

Protección de personas y animales

Los autores declaran que los procedimientos seguidos están de acuerdo con los reglamentos establecidos por los directores de la Comisión para Investigación Clínica y Ética y de acuerdo con la Declaración de Helsinki de la Asociación Médica Mundial.

Política de privacidad, consentimiento informado y Autorización del Comité de Ética

Los autores declaran que tienen el consentimiento por escrito para el uso de fotografías de los pacientes en este artículo.

Financiación

Este trabajo no recibió ninguna contribución, financiación o beca.

Disponibilidad de los datos científicos

No existen conjuntos de datos disponibles públicamente relacionados con este trabajo

Referências bibliográficas

- 1 - Stavarakas M, Karkos PD, Triaridis S, Constantinidis J. Endoscopic management of paediatric meningoencephaloceles: a case series. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2018 Nov;275(11):2727-2731. doi: 10.1007/s00405-018-5116-z.
- 2 - Aldo José. Da Silva, Fabrico A. C Lopes. Transpalatine Route for the correction of transsphenoidal Encephalocele in a child: A case report and literatura review. *Arquivos Brasileiros de Neurocirurgia: Brazilian Neurosurgery* 2017; 36(04): 234-237. doi: 10.1055/s-0037-1607999.
- 3 - Deopujari CE, Shah NJ, Shaikh ST, Karmarkar VS. et al. Endonasal endoscopic skull base surgery in children. *Childs Nerv Syst*. 2019 Nov;35(11):2091-2098. doi: 10.1007/s00381-019-04167-3.
- 4 - Hoffmann TK, Scheithauer MO, Sommer F, Lindemann J. et al. Surgery of Anterior Skull Base Lesions in Children. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2017 Mar;126(3):245-253. doi: 10.1177/0003489416685321.
- 5 - Kapitanov DN, Shelesko EV, Potapov AA, Kravchuk AD. et al. Endoscopic Endonasal Diagnosis and Treatment of Skull Base Meningoencephalocele. *Zh Vopr Neirokhir Im N N Burdenko*. 2017;81(2):38-47. doi: 10.17116/neiro201781238-47.
- 6 - Rajasekar G, Nair P, Abraham M, Jaiswal P. et al. Endoscopic

Endonasal Repair of a Persistent Craniopharyngeal Canal and Sphenoid Meningoencephalocele: Case Report and Review of Literature. *World Neurosurg.* 2019 Feb;122:196-202. doi: 10.1016/j.wneu.2018.10.138.

7 - Mukerji SS, Parmar HA, Gujar S, Passamani P. Intranasal meningoencephalocele presenting as a nasal polyp — a case report. *Clin Imaging.* Jul-Aug 2011;35(4):309-11. doi: 10.1016/j.clinimag.2011.01.005.

8 - Prasad V, David DJ, Santoreneos S, Moore MH. Surgical Implications of the Anteriorly Displaced Segments of the Anterior Cerebral Artery in the Management of Frontoethmoidal Meningoencephalocele. *J Craniofac Surg.* May/Jun 2019;30(3):816-817. doi: 10.1097/SCS.00000000000005170.

9 - Ma J, Huang Q, Li X, Huang D, Xian J. et al. Endoscopic transnasal repair of cerebrospinal fluid leaks with and without an encephalocele in pediatric patients: from infants to children. *Childs Nerv Syst.* 2015 Sep;31(9):1493-8. doi: 10.1007/s00381-015-2746-y