



## CASO CLÍNICO

# Herniación transdural espontánea de la médula espinal con recidiva temprana

A.P. Soriano Guillén<sup>a,\*</sup>, E. Mayayo Sinués<sup>b</sup>, I. Villarreal Salcedo<sup>a</sup> y M.A. Marín Cárdenas<sup>b</sup>

<sup>a</sup>Servicio de Rehabilitación y Medicina Física, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España

<sup>b</sup>Servicio de Radiodiagnóstico, Hospital Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España

Recibido el 3 de mayo de 2010; aceptado el 14 de julio de 2010

### PALABRAS CLAVE

Defecto dural;  
Herniación medular;  
Transdural;  
Resonancia magnética;  
Recidiva

### Resumen

La herniación transdural idiopática de la médula espinal (HTIME) es una entidad muy poco conocida que suele cursar con una clínica de mielopatía progresiva de largo tiempo de evolución cuyas manifestaciones radiológicas mediante resonancia magnética (RM) previo a la cirugía son diagnósticas.

Presentamos un caso de una paciente de 61 años de edad con una clínica de mielopatía espástica (síndrome de Brown-Séquard) cuyo diagnóstico de HTIME en RM fue concluyente. Se intervino quirúrgicamente mediante reducción y cierre del defecto dural, con mejoría clínica aunque quedando una paraplejía con nivel metamérico D5 (ASIA D). Sin embargo, posteriormente, la paciente refirió un nuevo episodio de empeoramiento clínico progresivo estableciéndose el diagnóstico de recidiva de la hernia, confirmada mediante RM. Se intervino por segunda vez a los 6 meses de la intervención inicial, cubriendo la sutura dural con un parche sintético.

Aunque es habitual la persistencia de déficits neurológicos residuales tras la cirugía, la recidiva de la hernia medular transdural espontánea resulta extraordinariamente rara y hay que considerarla, como un posible diagnóstico diferencial, en caso de empeoramiento progresivo tras una evolución inicial favorable.

© 2010 Elsevier España, S.L. y SERMEF. Todos los derechos reservados.

### Spontaneous transdural spinal cord herniation with early relapse

### Abstract

Idiopathic transdural spinal cord herniation (ITSCH) is a little-known medical condition that causes large duration progressive myelopathy that can be diagnosed based on the radiological manifestations on magnetic resonance imaging (MRI) prior to surgery.

### KEYWORDS

Dural defect;  
Spinal cord herniation;

\*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ton.sor@terra.es (A.P. Soriano Guillén).

Transdural;  
Magnetic resonance  
imaging;  
Recurrence

We present the case of a 61-year-old woman with spastic myelopathy (Brown-Sequard syndrome) and conclusive diagnosis of ITSCH by MRI. Surgery was carried out with reduction of the spinal cord and repair of the dural defect with clinical improvement but paraplegia at the metameric D5 level (ASIA D). However, six months after surgery a new progressive neurologic worsening was present with recurrent spinal cord herniation diagnosis confirmed with MRI. A second surgery was carried out, covering the dural defect with synthetic patch.

Although persistence of neurologic deficits after spinal surgery is common, recurrence of spinal cord herniation is extremely rare. It must be considered as a possible differential diagnosis in case of progressive neurologic deterioration after an initial favorable course.  
© 2010 Elsevier España, S.L. and SERMEF. All rights reserved.

## Introducción

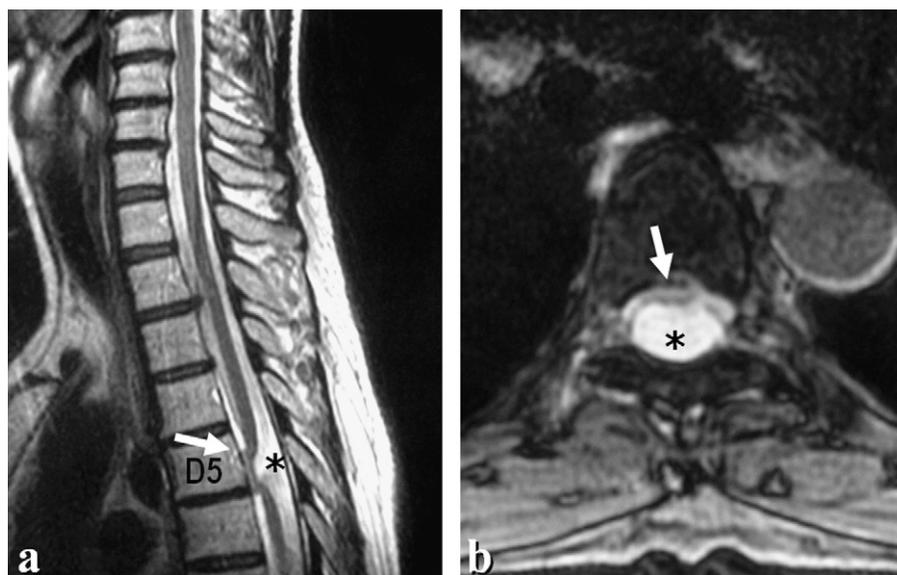
La herniación transdural idiopática de la médula espinal (HTIME) es una entidad poco conocida cuya frecuencia se cree infraestimada. Se produce por la extrusión de la médula espinal focalmente a través de un defecto en la duramadre, quedando el cordón encarcelado. La generalización del uso de la resonancia magnética (RM) en las últimas décadas ha permitido diagnosticar esta entidad cuyo aspecto radiológico es patognomónico, observándose en la región torácica una deformidad del cordón con desplazamiento brusco y frecuente rotación anterior o anterolateral que contacta focalmente con la duramadre<sup>1,2</sup>.

Aunque el tratamiento quirúrgico suele ser efectivo, el retardo en el diagnóstico y tratamiento así como la escisión inadvertida de tejido funcional en la hernia pueden justificar un pobre resultado terapéutico. Presentamos un caso excepcional de HTIME debido a su recurrencia temprana, con reintervención quirúrgica a los 6 meses del tratamiento inicial. Revisamos la bibliografía de

esta entidad, con especial atención a las recidivas posquirúrgicas.

## Presentación del caso

Mujer de 61 años, con antecedente de histerectomía y fibromialgia, con una clínica de varios años de evolución de dolores en la región dorsal alta y un empeoramiento en los últimos meses con paraplejía incompleta e hiperreflexia de predominio en extremidad inferior izquierda (EII), alteración del control esfinteriano, hipoestesia entre D5 y D8 y patrón de hemisección medular, con alteración sensorial propioceptiva mayor en el hemicuerpo izquierdo y termoalgésica de predominio contralateral. No refirió antecedente traumático significativo. Los análisis bioquímicos y hematológicos no revelaron hallazgos de interés. La RM dorsal mostró una imagen característica de hernia medular transdural en D5, con marcada deformidad del cordón espinal (fig. 1). Se intervino quirúrgicamente mediante costotransversectomía D5-D6 izquierda,



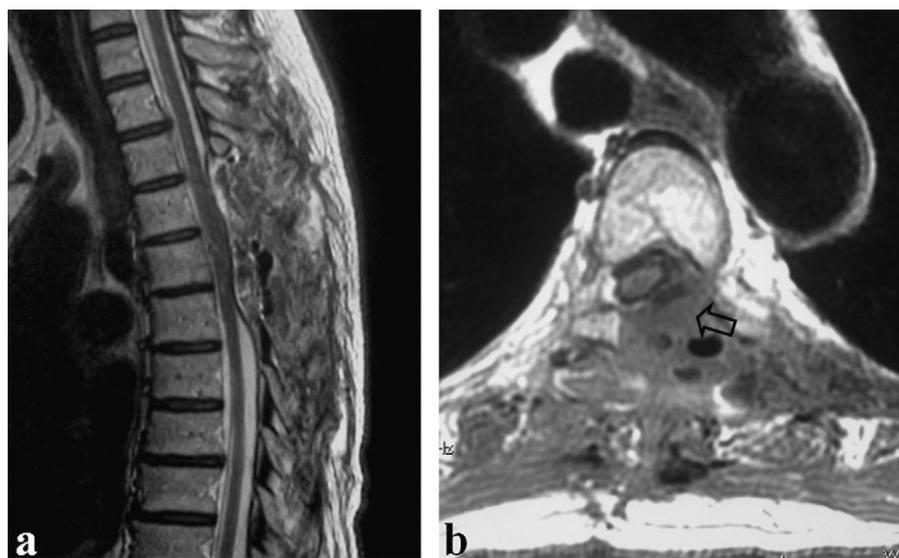
**Figura 1** Resonancia magnética previa a la primera intervención quirúrgica. Secuencia sagital FSE T2 (a): desplazamiento anterior abrupto del cordón espinal con reducción de su grosor a nivel de D5 (flecha blanca), correspondiente a la zona de herniación transdural de la médula asociado a un espacio subaracnoideo dorsal expandido, con artefactos de flujo del LCR (asterisco). (b) La imagen axial T2\* GE muestra un cordón espinal atrófico en la zona de la herniación (flecha blanca), a la altura del plexo venoso basivertebral del soma con la expansión del espacio del subaracnoideo dorsal (asterisco).

separación del saco dural, reducción de la hernia y sutura dural. Durante su ingreso en la unidad de lesionados medulares hasta el alta mejoró el balance muscular en ambas EII, con balance 4/5 en la EII y balance normalizado en la derecha, persistiendo hiperreflexia, déficit propioceptivo de predominio izquierdo, vejiga neurógena e incontinencia fecal. Pese a la mejoría inicial, en los meses siguientes, la paciente manifestó en su revisión en consulta, un empeoramiento de la deambulación, con caídas frecuentes, dolor en hemicuerpo izquierdo, hemiparesia izquierda con BM de 3/5, reflejo rotuliano

exaltado con clonus y vasoplegia (edema) en esta extremidad. Una nueva RM mostró una recidiva de la herniación medular en el mismo nivel (fig. 2). Se volvió a intervenir quirúrgicamente 6 meses después de la intervención inicial, realizándose laminectomía D4-D6, liberación dural posterolateral y sutura del ojal de la duramadre por el que se herniaba el cordón medular. Además se realizó una exposición de los ojales abriendo el saco posteriormente y se cerró con colocación de plancha de politetrafluoroetileno (Gore-Tex GR®). La evolución postoperatoria fue satisfactoria y en la última revisión



**Figura 2** Resonancia magnética a los 6 meses de la primera intervención. Secuencias sagital FSE T2 (a) y axial FSE T1 (b) donde se aprecian alteraciones muy similares a las mostradas previamente a la intervención. Obsérvese el defecto del canal neural a la izquierda de la línea media correspondiente al abordaje quirúrgico (flecha abierta).



**Figura 3** Resonancia magnética realizada a los dos meses y medio de la segunda intervención. Secuencia sagital FSE T2 (a) y axial T2\* GE (b), donde se demuestra la reducción de la herniación, con presencia de LCR anterior al cordón medular que parece recuperar su grosor normal, sin áreas de hiperseñal. Persiste leve desplazamiento del cordón dentro del canal espinal central por el efecto masa epidural dorsal producido por el tejido de granulación posquirúrgico en la región de la laminectomía, con alguna minúscula colección y zona hipointensa por probable material de injerto óseo (flecha abierta).

ambulatoria, un año después de la segunda cirugía la paciente presentaba como secuela neurológica paraplejía con nivel metamérico D5 ASIA D, persistiendo disestesias de predominio nocturno, vejiga neurógena con hiperactividad del detrusor e intestino neurógeno. El estudio RM de control ha mostrado una reducción de la herniación medular (fig. 3).

## Discusión

Desde la primera descripción de esta entidad realizada por Wortzman en 1974<sup>3</sup>, más de 110 casos de hernias transdurales espinales espontáneas se han descrito en la literatura científica. La mayor parte de estos casos se han publicado en la última década, probablemente motivado por la generalización del uso de RM, por lo que se piensa que su frecuencia podría estar infraestimada<sup>1,2</sup>. Según la reciente revisión realizada por Sasaki et al, la edad media en el momento de la presentación es de 53 años (22–78 años), con una predominancia en la mujer de 2:1 respecto al hombre<sup>1</sup>.

La HTIME se suele localizar entre D2 y D8 y es de localización anterior o anterolateral debido a que por la cifosis dorsal fisiológica la médula espinal tiende a localizarse anteriormente dentro del saco dural en esta región<sup>4</sup>. Se han observado casos más raros de herniación medular posterior, habitualmente de causa traumática y yatrogénica, en las regiones cervical y toracolumbar, a diferencia de las formas espontáneas<sup>5</sup>.

La naturaleza de este defecto dural no se conoce con exactitud. En una revisión de Waters et al de 30 casos, 57% de las herniaciones medulares fueron espontáneas<sup>5</sup>. En algunos casos se ha postulado que estos defectos duros podrían ser secundarios a herniaciones discales previas que podrían iniciar el proceso al producir adherencias entre las meninges y el cordón espinal, coincidiendo el epicentro de la herniación con el nivel de un disco intervertebral, lo que no ocurre en nuestro caso<sup>6,7</sup>. Para Adams et al las protrusiones discales dorsales calcificadas pueden ser lo suficientemente duras para dañar la duramadre y producir el defecto<sup>8</sup>. Se ha observado en la evolución de estas lesiones que el prolapso transdural del cordón puede introducirse en un defecto óseo adyacente en la cara posterior del cuerpo vertebral debido a la erosión producida por el efecto de la pulsación del líquido cefalorraquídeo transmitido al cordón espinal encarcelado<sup>8</sup>. Este prolapso de la médula dentro del cuerpo vertebral es un dato de mal pronóstico<sup>9</sup>.

Se han descrito también defectos congénitos en la capa interna de la duramadre debido a una duplicación dural en pacientes con HTIME<sup>4</sup>. En estos casos la médula espinal se hernia en una cavidad formada entre las capas durales interna defectuosa y externa íntegra<sup>5</sup>, lo que cabe considerarse como la opción más probable en nuestro caso pese a que no se describió en el informe quirúrgico. Esta cavidad puede formar un quiste aracnoideo extradural o un pseudomeningocele anterior<sup>8</sup>. Aunque algunos autores han descrito la presencia de quistes aracnoideos intradurales dorsales en la zona de la herniación, solamente se ha demostrado radiológicamente en un caso previo<sup>10</sup>. Salvo esta excepción los estudios mielográficos y las secuencias de RM específicas para valorar el flujo de LCR (*phase-contrast*) no han demostrado la presencia de quistes aracnoideos, por lo que se piensa la mayor parte de los quistes intradurales

descritos estarían simulados por el ensanchamiento del espacio subaracnoideo dorsal<sup>4</sup>. En nuestro caso el LCR dorsal mostraba la clásica imagen de artefactos por movimiento del LCR (artefacto de Gibbs), por lo que se excluyó la presencia de un quiste aracnoideo.

Los pacientes suelen presentar una clínica de mielopatía lentamente progresiva debido a la compresión del tejido neural en la región espinal encarcelada. En la citada revisión de Sasaki, un 73% se presentaron con un síndrome de Brown-Séquard, un 19% con espasticidad (mono o paraparesia) y 8% con parestesias o dolor en piernas<sup>1</sup>. Algunos pacientes pueden presentar cefaleas previas por hipotensión licuorrálica<sup>11</sup>. En estos casos la herniación del cordón podría ocluir el defecto dural y la fístula de LCR causando la resolución de las cefaleas. Este mismo hecho se ha observado en hernias discales torácicas transdurales, una entidad diferente que no debe confundirse con la HTIME<sup>12</sup>. El dolor es un síntoma asociado descrito únicamente en la mitad de los pacientes, pese a que la duramadre es una estructura sensible al dolor<sup>1</sup>. La lesión dural y la adherencia del cordón a la duramadre podría explicar los antecedentes de dolor crónico dorsal de nuestro paciente.

El tratamiento de elección de la HTIME en casos de empeoramiento progresivo es quirúrgico y consiste en un abordaje espinal posterior mediante laminectomía con liberación del cordón medular del punto de anclaje meníngeo y reparación del defecto dural mediante sutura o parche. Otros autores prefieren ampliar el defecto dural para prevenir la encarcelación<sup>13</sup>. La evolución posquirúrgica es variable, siendo el pronóstico mejor cuando se interviene de forma temprana y menos favorable en los pacientes con paraplejía espástica (46% con mejoría) respecto a los que presentan un síndrome de Brown-Séquard previo a la cirugía (76% mejoría)<sup>2-4,13</sup>. Habitualmente la mejoría no es completa, con persistencia de déficits sensitivos y de espasticidad en las piernas<sup>14</sup>. La ausencia de mejoría clínica (20% de los casos) o el empeoramiento posquirúrgico (7%) puede deberse a una escisión parcial de tejido funcional presente en la herniación o a un compromiso vascular medular durante la cirugía<sup>1,4</sup>. Hay que diferenciar esta evolución desfavorable con el empeoramiento transitorio limitado al periodo postoperatorio inicial que no es infrecuente. La existencia de una zona de atrofia en el cordón y una imagen filiforme en T2 centromedular en los controles posquirúrgicos, sugieren la existencia de mielomalacia y se asocian a un pobre resultado<sup>1</sup>.

Únicamente se han descrito 5 casos previos de HTIME recidivada, entre 18 meses y 10 años de la intervención, más tardías que en nuestro caso. La causa de la mayor parte de las recidivas fue la falta de cierre o el cierre inadecuado del defecto dural<sup>5</sup>. Los parches de material sintético permiten un cierre hermético del defecto dural y previenen la formación de adherencias evitando las recidivas<sup>2</sup>. Sin embargo, Nakagawa et al presentaron un caso de recurrencia atribuido a una cobertura incompleta del defecto dural con una membrana de Gore-Tex<sup>®</sup>, con introducción del cordón medular en un defecto erosivo vertebral<sup>7</sup>. Ammar et al presentaron un caso de recurrencia intervenida a los 18 meses de la cirugía inicial, con nuevo episodio de empeoramiento clínico debido al desarrollo de una constricción concéntrica del cordón por una plastia dural alogénica asociado a siringomielia<sup>15</sup>. El movimiento del cordón medular motivado por la pulsación cardíaca y la

respiración así como los movimientos de flexoextensión favorecen el desplazamiento del cordón hacia el defecto dural, no cubierto en la primera intervención por parche dural y tal vez incompletamente cerrado, con formación de adherencias que justificarían la recurrencia precoz de nuestro caso.

En definitiva, la HTIME es una entidad no tan rara aunque poco conocida de mielopatía torácica progresiva. La RM es la técnica diagnóstica complementaria de elección. Aunque es habitual la mejoría clínica posquirúrgica, esta no suele ser completa y suelen persistir déficits neurológicos. La posibilidad de recurrencia debe tenerse en cuenta en casos de empeoramiento clínico posquirúrgico.

## Bibliografía

1. Sasani M, Ozer AF, Vural M, Sarioglu AC. Idiopathic spinal cord herniation: case report and review of the literature. *J Spinal Cord Med.* 2009;32:86-94.
2. Selviaridis P, Balogiannis I, Foroglou N, Hatzisotitiou A, Patsalas I. Spontaneous spinal cord herniation: recurrence after 10 years. *Spine J.* 2009;9:e17-9.
3. Wortzman G, Tasker RR, Rewcastle NB, Richardson JC, Pearson FG. Spontaneous incarcerated herniation of the spinal cord into a vertebral body: a unique cause of paraplegia. Case report. *J Neurosurg.* 1974;41:631-5.
4. Brugières P, Malapert D, Adle-Biasette H, Fuerxer F, Djindjan M, Gaston A. Idiopathic spinal cord herniation: value of MR phase-contrast imaging. *Am J Neuroradiol.* 1999;20:935-9.
5. Watters MR, Stears JC, Osborn AG, Turner GE, Burton BS. Transdural spinal cord herniation: imaging and clinical spectra. *Am J Neuroradiol.* 1998;19:1337-44.
6. Hausmann ON, Moseley IF. Idiopathic dural herniation of the thoracic spinal cord. *Neuroradiology.* 1996;38:503-10.
7. Nakagawa H, Kamimura M, Uchiyama S, Takahara K, Itsubo T, Miyasaka T. Idiopathic spinal cord herniation associated with a large erosive defect: a case report and review of the literature. *J Spinal Disord Tech.* 2003;16:299-305.
8. Adams RF, Anslow P. The natural history of transdural herniation of the spinal cord. *Neuroradiology.* 2001;43:383-7.
9. Barbagallo GM, Marshman LA, Hardwidge C, Gullan RW. Thoracic idiopathic spinal cord herniation at the vertebral body level: a subgroup with a poor prognosis? Case reports and review of the literature *J Neurosurg.* 2002;97(3 Suppl):369-74.
10. Slavotinek JP, Sage MR, Brophy BP. An unusual spinal intradural arachnoid cyst. *Neuroradiology.* 1996;38:152-4.
11. Inoue T, Cohen-Gadol AA, Krauss WE. Low-pressure headaches and spinal cord herniation. Case report. *J Neurosurg.* 2003;98(1 Suppl):3-5.
12. Winter SC, Maartens NF, Anslow P, Teddy PJ. Spontaneous intracranial hypotension due to thoracic disc herniation. *J Neurosurg.* 2002;86(3 Suppl):343-5.
13. Watanabe M, Chiba K, Matsumoto M, Maruiwa H, Fujimura Y, Toyama Y. Surgical management of idiopathic spinal cord herniation: a review of nine cases treated by the enlargement of the dural defect. *J Neurosurg Spine.* 2001;95:169-72.
14. Vallée B, Mercier P, Menei P, Bouhour F, Fischer C, Fournier D, et al. Ventral transdural herniation of the thoracic spinal cord: surgical treatment in four cases and review of literature. *Acta Neurochir (Wien).* 1999;141:907-13.
15. Ammar KN, Pritchard PR, Matz PG, Hadley MN. Spontaneous thoracic spinal cord herniation: three cases with long-term follow-up. *Neurosurgery.* 2005;57:E1067.