

Equinocosis vertebral

Vertebral echinococcosis

Luis Venegas,¹ Eloy Peña,² Mikaela Kcomt³ y Mijail Mujica⁴

RESUMEN

Varón de 14 años de edad, quien ingresó con un cuadro de lumbalgia, paraparesia y falta de control de esfínteres. Los estudios de imágenes mostraron tumoraciones quísticas líticas vertebrales con compromiso paravertebral, por lo que se le realizó laminectomía descompresiva, exéresis de quistes vertebrales y fijación de columna, y se comprobó el diagnóstico de equinocosis.

PALABRAS CLAVE: Hidatidosis, *Echinococcus granulosus*, columna vertebral.

ABSTRACT

A 14 year-old male patient was admitted to the hospital with lower back pain, paraparesis and loss of sphincter control. The findings of the vertebral CT and MRI showed cystic tumors in the lumbosacral region with paravertebral lesions so he underwent to neurosurgery: laminectomy, cystectomy and vertebral fixation. The final diagnosis was equinococcosis.

KEYWORDS: Hydatid disease, *Echinococcus granulosus*, spine.

INTRODUCCIÓN

La hidatidosis es un problema de salud pública, una zoonosis hiperendémica en Perú, en muchos países de América del Sur, del Mediterráneo y en regiones de África y Asia.^{1,2} En algunas regiones del Ande Peruano la tasa de prevalencia observada entre humanos, perros y las ovejas es 9 %, 46 % y 32 %, respectivamente.^{3,4}

Echinococcus granulosus causa equinocosis quística y el ciclo de vida incluye un hospedero definitivo (perros y especies relacionadas) y un hospedero intermediario (ovinos, caprinos, equinos, vacunos y porcinos). Los seres humanos son hospederos accidentales y no tienen ningún papel en el ciclo de transmisión.

La tenia adulta en el intestino delgado del huésped definitivo, se compone de segmentos de proglótides, que producen huevos los cuales contienen embriones (oncosferas). Los huevos son expulsados en la heces del huésped definitivo y se liberan al medio ambiente en el que son infecciosos para los huéspedes intermediarios y accidentales como los humanos; después de la ingestión

1 Médico internista. Hospital Nacional EsSalud Edgardo Rebagliati Martins (HNERM), Lima.

2 Médico residente. HNERM.

3 Interna de medicina. HNERM.

4 Médico neurocirujano. Departamento de Neurocirugía. HNERM.

de los huevos las oncosferas salen y penetran la mucosa intestinal, ingresan a la sangre o linfa y migran generalmente hacia alguna víscera, como hígado, pulmón o menos frecuentemente a otros órganos como bazo, páncreas, superficie peritoneal, corazón riñón e incluso huesos.⁵⁻⁹ Unos días más tarde, un quiste lleno de líquido comienza a desarrollarse y, luego, forma múltiples capas, para convertirse en un metacéstodo (quiste hidatídico). Los protoescólices se desarrollan dentro del quiste hidatídico y se convierten en quistes hijos (quistes secundarios).

Reportamos el caso de un paciente varón de 14 años con paraparesia debido a compresión medular por una enfermedad hidatídica ósea de localización lumbosacra y con compromiso paravertebral.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente varón de 14 años de edad, natural y procedente de Juliaca, Puno, estudiante, sin antecedentes patológicos importantes. Transferido de Juliaca con un cuadro clínico de cuatro años de evolución caracterizado por lumbalgia, paraparesia flácida progresiva, incontinencia urinaria y fecal. Los síntomas que aumentaron en intensidad y se hicieron más evidentes cuatro meses antes del ingreso al hospital. Trajo el diagnóstico tomográfico de tumoración quística lumbosacra para el estudio y tratamiento.

Examen físico

Reveló a un paciente despierto, con funciones vitales dentro de valores normales. Piel con leve palidez; tejido celular subcutáneo disminuido. Cuello normal. Pulmones sin alteraciones. Cardiovascular, ruidos cardiacos normales, no soplos. Abdomen blando, depresible, no masas. Genitourinario sin alteraciones. En el examen neurológico, paraparesia flácida en los miembros inferiores, 3/5 a predominio distal, pie izquierdo equino, hipotrofia muscular de miembros inferiores y signo de Babinski positivo bilateral. Asimismo, se evidenció falta de control de esfínteres.

Exámenes auxiliares

Hemograma: Hb 9,8 g/dL; VCM 86,6 fL; HCM 27,8 fL; leucocitos 11 810 células/mm³, de los cuales eosinófilos 60/mm; plaquetas 198 000/mm³. VSG 48 min/h. Glucosa 81 mg/dL; creatinina 0,36 mg/dL; proteínas totales 7,6 g/dL; albúmina 3,5 g/dL. Bilirrubina total 0,40 mg/dL; bilirrubina directa 0,20 mg/dL. AST 26 U/L, ALT 32 U/L.

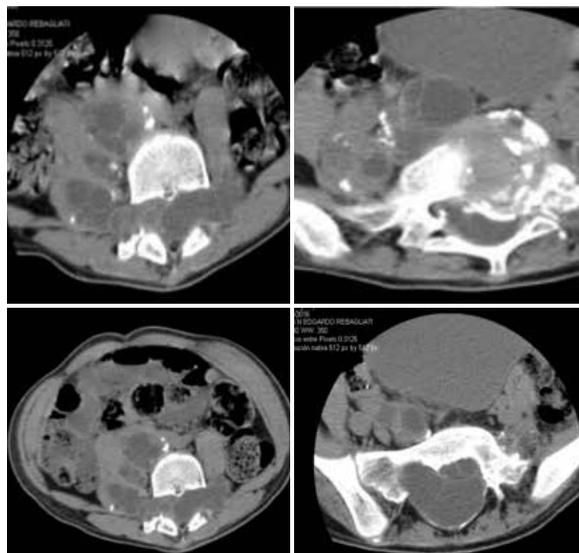


Figura 1.

TAC lumbar sin contraste: lesiones expansivas quísticas en el psoas derecho de 8 cm por 4 cm con tabiques internos y algunas calcificaciones; lesión expansiva quística en psoas izquierdo de 3 cm por 2 cm sin calcificaciones. Lesión expansiva quística a nivel de canal raquídeo, además de otra lesión expansiva quística de 5 cm por 4 cm con osteólisis expansiva ósea a nivel de L5-S1-S2. Figura 1.

Ecografía abdominal y TEM tórax-abdomen: pulmón, hígado, bazo, páncreas, vesícula biliar, vía biliar, adrenales y ambos riñones normales.

TEM de columna lumbar con contraste dinámico: colapso vertebral total de L5 que origina retrolistesis de L4 condicionado por la presencia de lesiones quísticas multitabicadas con parcial calcificación de sus paredes: la mayor de 70 x 38 x 58 mm, localizada en el psoas derecho, con efecto de masa y desplazamiento anterior de los vasos ilíacos; la segunda, de aproximadamente 21 x 23 x 58 mm, de ubicación parasagital izquierda; y, la tercera lesión, en el canal raquídeo, desde L4 hasta S2, con ampliación del mismo por remodelación y protrusión por los forámenes neurales. Estas lesiones no mostraron realce significativo en las fases arterial y venosa. Además, se apreció marcada sobredistensión vesical con engrosamiento mural concéntrico. Figura 2. Western blot para hidatidosis: antígeno 21 kDa positivo, antígeno 1 kDa positivo, antígeno 8 kDa positivo.



Figura 2.

Se le inició tratamiento con albendazol, 400 mg, cada 12 horas, y fue intervenido quirúrgicamente con el diagnóstico presuntivo de tumoración lumbar intradural con expansión paravertebral y síndrome de cauda equina. Se realizó estabilización lumbopélvica con tornillos pediculares L3-L4 al ilíaco (técnica de Galveston modificada), Figura 3; abordaje por vía posterior y laminectomía descompresiva L5 y S1 así como extirpación, aspiración y lavado de hidátides vertebrales con suero hipertónico.

Se envió tejidos a anatomía patológica que fue informado como fragmentos de tejido color blanco nacarado compatible con quiste hidatídico no viable. Figura 4.

En la recuperación, el paciente mejoró la movilidad parcialmente en los miembros inferiores pero no controlaba los esfínteres, se mantuvo con tratamiento antiparasitario y nutrición enteral total.

RMN abdominal de control con gadolinio mostró cambios posquirúrgicos vertebral lumbar con tornillos de ingreso transpedicular e, incidentalmente, las imágenes coronales mostraron formaciones cistoideas de localización retroperitoneal a ambos lados de la línea media. Figura 5.

Uro-TEM: no hidronefrosis y no litiasis renal ni ureteral, uréteres de calibre conservado y una vejiga irregular. Figura 6.

Ante la sospecha de enfermedad hidatídica diseminada se realizó los siguientes estudios.

RMN de columna: Lesión quística compleja centrada en región del canal del sacro y con extensión paravertebral bilateral a predominio derecho en la transición lumbosacra adyacente; y, con láminas plegadas internas relacionadas con una probable hidatidosis. Esta lesión condicionaba la remodelación ósea en el sacro lo que



Figura 3.

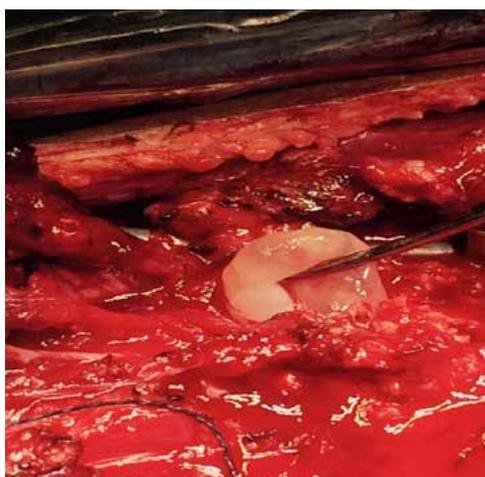


Figura 4.



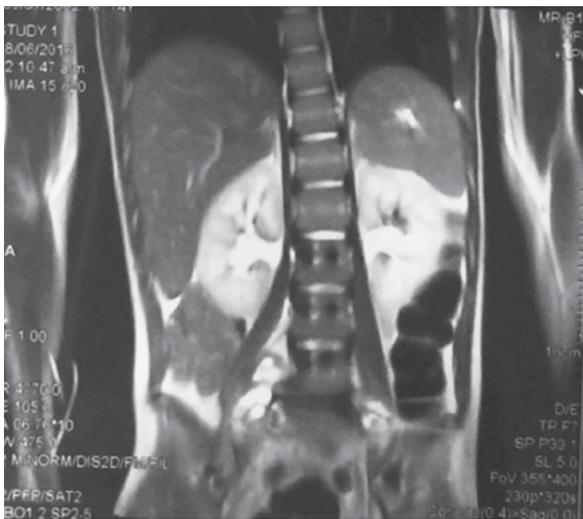


Figura 5.

indicaba su cronicidad. Además, retrolistesis y estenosis raquídea central moderada L5-S1. (Figura 7).

Cistoscopia: trabeculaciones en el fondo vesical y pseudopólipos inflamatorios en relación a vejiga pseudodiverticular y vejiga neurogénica; no se visualizó hidátides.

Laparatomía exploratoria: Abierta la cavidad, no se evidenció vesículas o quistes en hígado, peritoneo, retroperitoneo y región psoasílica. No líquido libre ni visceromegalia.

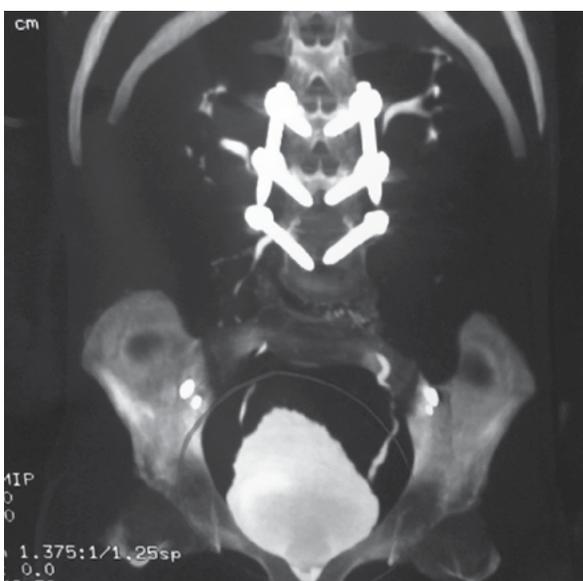


Figura 6.

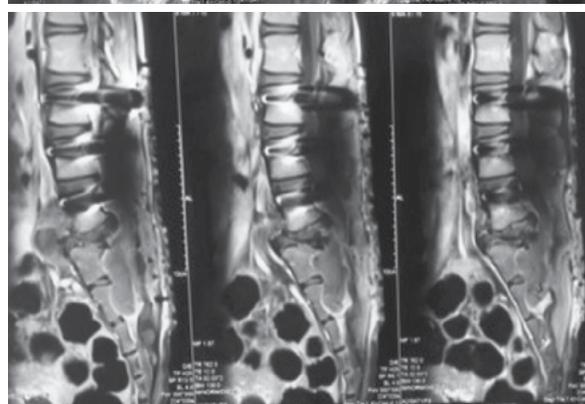
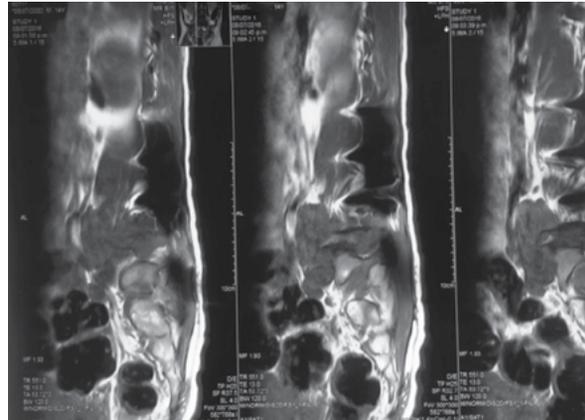
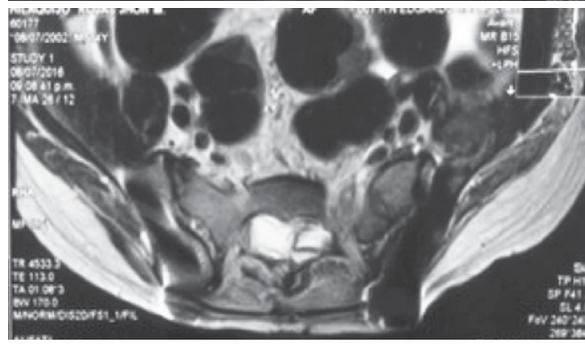


Figura 7.

Se decidió el alta con tratamiento de albendazol y terapia física-rehabilitación.



DISCUSIÓN

La hidatidosis ósea es una patología rara, que representa de 0,5 % a 2,0 % de todas las hidatidosis humanas.⁹⁻¹³ Para que lleguen al hueso, las larvas tienen que pasar los filtros pulmonar y hepático.⁹

La columna vertebral es el lugar más comúnmente afectado,^{9,10,13,14} en la hidatidosis ósea. Las vértebras más frecuentemente afectadas son las torácicas y cervicales.^{15,16}

El comportamiento de la larva en el tejido óseo es diferente que en otros tejidos. No ocurre formación pericística. La larva crece en dirección de las zonas de menor resistencia, especialmente en los canales óseos,^{17,18} infiltra y daña el hueso tal y como lo hiciera un tumor; reemplaza al tejido óseo entre las trabéculas y desarrolla un lento crecimiento a través de múltiples vesículas. En su imparable progresión, puede alcanzar el hueso denso cortical y causar una fractura espontánea patológica o la enfermedad puede diseminarse a los tejidos vecinos.⁹

Esta forma de crecimiento y evolución explica la lesión destructiva ósea en L5 y en la zona sacra del paciente presentado y, además, permite comprender los hallazgos encontrados en las imágenes mostradas donde se comportan como lesiones expansivas quísticas en el tejido paravertebral y psoas, lesiones que imitan a un absceso frío como el de la tuberculosis, enfermedad con la cual el diagnóstico diferencial es muy importante.⁹

Usualmente este crecimiento es asintomático, ya que desde que se produce la invasión por el parásito hay un periodo de latencia muy largo, usualmente años, por lo que el diagnóstico suele ser tardío en fases muy avanzadas o cuando las complicaciones aparecen como fue el caso del paciente, que se presentó con compresión medular, complicación frecuente en enfermedad hidatídica ósea. Otras complicaciones descritas son fistulización e infección bacteriana paravertebral.^{9,10}

El diagnóstico en esta enfermedad predominantemente asintomática suele ser radiológico. La TAC ha probado ser un método sensitivo para probar los límites de la lesión destructiva en el hueso y mostrar la diseminación de los quistes hidatídicos en los tejidos blandos adyacentes.^{14,19} Sin embargo, y pese a ser una buena herramienta diagnóstica, el paciente del presente estudio llegó al hospital con la sospecha tomográfica de tumor intradural, un diagnóstico con el cual comúnmente se confunde la enfermedad hidatídica ósea e incluso se

debe tener en cuenta que existen otras enfermedades en el diagnóstico diferencial, como osteomielitis crónica, displasia fibrosa del hueso, osteosarcoma, plasmocitoma, tumor pardo del hiperparatiroidismo, pseudotumor hemofílico, lesiones quísticas benignas, metástasis, cordoma y tumor de células gigantes.^{9,12}

Es muy importante que consideremos a la enfermedad hidatídica ósea en el diagnóstico diferencial de toda lesión osteolítica con lesión de masa paravertebral con o sin compromiso neurológico, más aún si procede de un área endémica como la peruana.²⁰

En la actualidad, la RMN es el método radiológico de elección, muestra lesiones quísticas con tabiques, membranas con señales hipointensas en T1 e hiperintensas en T2.^{10,13,21}

En el paciente presentado, no se comprobó el compromiso peritoneal, la enfermedad se limitó al hueso y la zona paravertebral.

La detección de anticuerpos contra antígenos específicos es útil para el diagnóstico primario y para el seguimiento después del tratamiento.²²⁻²⁴

La hidatidosis vertebral tiene una progresión tórpida y la remisión completa es raramente posible.²⁵ El tratamiento inicial de la hidatidosis vertebral es la extirpación quirúrgica para la descompresión de los nervios espinales, la cirugía debe ser agresiva seguida de albendazol.^{26,27}

Idealmente las lesiones deben ser removidas utilizando las mismas técnicas que se usan para extirpar tumores malignos. Si las lesiones son muy extensas, el curetaje y/o aspiración del quiste debe ser realizada¹³ y la laminectomía serían los procedimientos de elección, tal y como se practicó en el paciente de este estudio.

El albendazol es el agente antihelmíntico preferido en el tratamiento de la enfermedad hidatídica. El uso antes de la cirugía facilita el acto quirúrgico por reducción de la presión intraquística y también reduce el riesgo de recurrencia, pero la duración del tratamiento es controversial.^{28,29} La OMS recomienda tratamiento de cuatro a seis semanas¹³ pero en este paciente se continuó hasta completar ocho semanas poscirugía.

La recurrencia es un problema y en el paciente presentado persisten aun lesiones sacras que ameritan el seguimiento continuo. Los agentes escolicidas no matan a todas las vesículas hijas y hace posible la recurrencia, lo que, finalmente, convierte a la cirugía en un tratamiento

paliativo.¹⁰ A pesar de que la supervivencia a largo plazo es posible, la enfermedad no es fácil de erradicar y de hecho es casi imposible de curar^{10,29}

Como la hidatidosis es un problema de salud pública e hiperendémica en Perú, la prevención parece ser la mejor manera de enfrentar el problema; además de las medidas sanitarias, la vacunación de los huéspedes intermedios parece ser la solución. Hay estudios que recomiendan dos dosis de vacuna EG95, que contiene una proteína recombinante purificada del parásito oncosfera y un adyuvante, administradas con un mes de diferencia y seguidos de un refuerzo anual, con una efectividad hasta de 99 %.³⁰⁻³³

La persistencia de enfermedad hidatídica ósea en la zona sacra en el paciente presentado ejemplifica lo difícil que es la erradicación de la enfermedad, más aún cuando el tiempo de enfermedad es muy largo o cuando el compromiso es extenso.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Salgado D, Suarez O, Cabrera L. Características clínicas y epidemiológicas de la equinococosis quística registrados en un área endémica en los andes centrales del Perú. *Neotrop Helminthol*. 2007;1:69-83.
- Reto L, Pichilingue C, Pichilingue P, et al. Características clínicas y terapéuticas en niños y adolescentes con hidatidosis hepática en el Hospital Nacional Hipólito Unanue del 2002 al 2011. *Rev Gastroenterol Peru*. 2012;32-3:290-296.
- Moro PL, Bonifacio N, Gilman RH, et al. Diagnóstico de campo de la infección por *Echinococcus granulosus* entre los hospedadores intermediarios y definitivos en un foco endémico de la equinococosis quística humana. *Trans R Soc Trop Med Hyg*. 1999;93:611.
- Moro PL, MacDonald J, Gilman RH, et al. Epidemiology of *Echinococcus granulosus* infection in the central Andes of Peru. *Bull World Health Organ*. 1997;75:553-61.
- Gottstein B. Molecular and immunological diagnosis of echinococcosis. *Clin Microbiol Rev*. 1992;5(3):248.
- Iskender S, Tirnaksiz, Dogan R. Cystic hydatidic disease: Current trends in diagnosis and management. *Surg Today*. 2004;34(12):987-996.
- Díaz-Menéndez M, Pérez-Molina JA, Norman FF et al. Tratamiento y la evolución de la equinococosis quística cardíaca y endovascular. *Trop Dis* 2012; 6: e1437.
- Azis F, Pandya T, Patel H, et al. Nephrotic presentation in hydatidic cyst disease with predominant tubulointerstitial disease. *Int J Nephrol Renovasc Dis*. 2009;2:23-26.
- Contreras B. Quiste hidatídico óseo. *Reemo*. 2008;17(1):15-6.
- Song X, Dng L, Wen H. Bone hydatid disease. *Rev Postgrad Med J*. 2007; 83:536-542.
- Zaalounil, Ouertatani M, Meherzi M, et al. Le kyste hydatique costovertebral primitif: observation et revue de la littérature. *La Revue de Médecine Interne*. 2010;31:69-71.
- Kalonova K, Proichev V, Stefanova P, et al. Hydatidic bone disease: a case report and review of the literature. *J Orthop Surg*. 2005;13(3):323-325.
- Loudiye H, Akataou S, Hassikou H, et al. Hydatidic disease of bone. *Joint Bone Spine*. 2003;70:352-355.
- Karray S, Zlitni M, Karray M, et al. Extensive vertebral hydatidosis. A study. *Acta Orthopaedica Belgica*. 1993;(59):100-105.
- Song X, Liu D, Wen H. Diagnostic pitfalls of spinal echinococcosis. *J Spinal Disord Tech*. 2007;20:180-5.
- Shukla S, Trivedi A, Singh K, Sharma V. Primary lumbosacral intradural hydatid cyst in a child. *J Neurosci Rural Pract*. 2010;1:109-11.
- Torricelli P, Martinelli C, Biagini R et al. Radiographic and computed tomographic findings in hydatid disease of bone. *Skeletal Radiol*. 1990;19:435-9.
- Ogut AG, Kanberoglu K, Altug A, et al. CT and MRI in hydatid disease of cervical vertebrae. *Neuroradiol*. 1992;34:430-2.
- Braithwaite R, Less R. Vertebral hydatid disease, radiological assessment. *Radiol*. 1981;140:763.
- Schnepper GD, Johnson WD. Hidatidosis espinal recurrente en América del Norte: Presentación de un caso y revisión de la literatura. *Neurosurg Focus*. 2004;17.
- Davolio S, Cannosi G, Nicoli F et al. Hydatid disease: MR imaging study. *Radiology*. 1990;175:701-706.
- Morar R, Feldman C. *Eur Respir J*. 2003;21(6):1069.
- McManus DP, Zhang W, Li J, Bartley PB. *Lancet*. 2003;362(9392):1295.
- Riganò R, Profumo E, Ioppolo S, Notargiacomo S, Ortona E, Teggi A, Siracusano A. Immunological markers indicating the effectiveness of pharmacological treatment in human hydatid disease. *Clin Exp Immunol*. 1995;102(2):281-285.
- Mundial J. *Surg*. 2001;25(1):75-82.
- Islekel S, Ersahin Y, Zileli M, Oktar N, Oner K, Ovalados I et al. Enfermedad de la médula hidatídica. *Médula Espinal*. 1998;36:166-70.
- Ozdemir HM, Ogun TC, Tasbas B. A lasting solution is hard to achieve in primary hydatid disease of the spine: Long-term results and an overview. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2004;29:932-7.
- Sharma NK, Chitkara N, Bakshi N, Gupta P. Primary spinal extradural hydatid cyst. *Neurol India*. 2003; 51:89-90.
- Markakis P, Markaki S, Prevedorou D, et al. Echinococcosis of bone: clínico-laboratory findings and differential diagnostic problems. *Arch Anat Cytol Pathol*. 1990;38:92-4.
- García-Vicuna R, Carvajal I, Ortiz-García A, López-Robledillo JC, Laffon A, Sabando P. Primary solitary Echinococcosis in cervical spine: Postsurgical successful outcome after long-term albendazole treatment. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2000; 25:520-3.
- Craig PS. Echinococcus granulosus: immunodiagnosis and vaccination, a perspective. *Parasitologia*. 1997;39(4):345-7.
- Heath DD, Holcman B. Vaccination against echinococcus in perspective. *Acta Trop* 1997; 67(1-2):37-41.
- Lightowers MV, Lawrence SB, Gauci CG, Young J, Ralston MJ, Maas D, Heath DD. *Parasite Immunol*. 1996; 18(9):457.
- Heath DD, Robinson C, Shakes T, Huang Y, Gulnur T, Shi B, et al. Vaccination of bovines against *Echinococcus granulosus* (cystic echinococcosis). *Vaccine*. 2012;30(20): 3076-81.

CORRESPONDENCIA: Dr. Luis Fernando Venegas Tresierra.
venegas1971@yahoo.com