

# Neumoencéfalo y fístula de líquido cefalorraquídeo tras resección de tumor del *sulcus* superior (tumor de Pancoast)

B. de Olaiz Navarro, P. León Atance y A. Alix Trueba

Sección de Cirugía Torácica. Hospital General Universitario. Albacete. España.

El neumoencéfalo, como consecuencia de una fístula subaracnoideo-pleural, es una complicación muy poco frecuente tras la resección de una neoplasia pulmonar (hemos encontrado únicamente 17 casos descritos en la bibliografía). Se presenta el caso de un paciente de 65 años, intervenido con el diagnóstico de tumor del *sulcus* superior tras recibir radioterapia neoadyuvante, al que se le practicaron lobectomía superior izquierda y resección costal. Como complicación postoperatoria temprana, desarrolló una fístula subaracnoideo-pleural y neumoencéfalo, que requirió reintervención y drenaje. Una meningitis abacteriana cronicada llevó a sospechar su recidiva, y fue necesaria una nueva toracotomía para su resolución definitiva.

**Palabras clave:** *Neumoencéfalo. Tumor de Pancoast. Complicaciones postoperatorias. Fístula subaracnoideo-pleural. Meningitis.*

## Introducción

El neumoencéfalo consecuencia de una fístula de líquido cefalorraquídeo (LCR) subaracnoideo-pleural es una complicación muy poco frecuente tras una toracotomía<sup>1-17</sup>. Las fístulas de LCR son frecuentes en las fracturas de la base del cráneo<sup>12</sup> y se suelen asociar con neumoencéfalo. En cambio, las fístulas de LCR en la cavidad pleural son más raras y se describen en la bibliografía tras traumatismos de columna cerrados o penetrantes<sup>18,19</sup> y, menos frecuentemente, tras una toracotomía para resección de neoplasias pulmonares o paravertebrales.

Desde el primer caso de neumoencéfalo descrito en la bibliografía en 1974<sup>1</sup>, se han encontrado, mediante el sistema de búsqueda bibliográfica MEDLINE, 17 casos de fístula de LCR secundarios a toracotomía para resección de neoplasia pulmonar<sup>1-17</sup>. A continuación se describe un caso más de esta infrecuente complicación y se

## Pneumocephalus and Cerebrospinal Fluid Fistula Following Removal of a Superior Sulcus Tumor (Pancoast Tumor)

Pneumocephalus resulting from a subarachnoid-pleural fistula following resection of a pulmonary neoplasm is a very rare postoperative complication: we have found only 17 cases in the literature. We report the case of a 65-year-old man diagnosed with a superior sulcus tumor who underwent a left upper lobectomy and costal resection following neoadjuvant radiation therapy. Soon after surgery, the patient developed a subarachnoid-pleural fistula and pneumocephalus that required reoperation and drainage. Recurrence was suspected when chronic aseptic meningitis developed. Another thoracotomy was required to resolve the complication.

**Key words:** *Pneumocephalus. Pancoast tumor. Postoperative complications. Subarachnoid-pleural fistula. Meningitis.*

discuten la importancia de la sospecha clínica, los métodos diagnósticos empleados y las opciones de tratamiento.

## Observación clínica

Varón de 65 años sin antecedentes de interés, que presentaba una clínica de dolor en la región escapular y el hombro izquierdo, con irradiación de plexo braquial, de 2 meses de evolución. La clínica y la imagen radiológica eran compatibles con tumor de Pancoast sin afectación ganglionar mediastínica, y mediante punción-aspiración con aguja fina se le diagnosticó de carcinoma no microcítico. Tras un ciclo de radioterapia de 10 sesiones con una dosis total de 30 Gy, se objetivó una buena respuesta clínica y radiológica, por lo que se procedió a la intervención quirúrgica, consistente en lobectomía superior izquierda con resección en bloque de los segmentos posteriores de las costillas segunda y tercera, junto con sus músculos intercostales, hasta el cuerpo vertebral D3 (sin afectación tumoral), seguida de linfadenectomía mediastínica; no se apreció invasión del plexo braquial. El postoperatorio inmediato transcurrió sin incidencias, con

Correspondencia: Dra. B. de Olaiz Navarro.  
Hermanos Falcó, 37. 02006 Albacete. España.  
Correo electrónico: bdeo@sescam.jccm.es

Recibido: 24-12-2003; aceptado para su publicación: 9-2-2004.



Fig. 1. Tomografía axial computarizada craneal que demuestra un importante neumoencéfalo localizado en el espacio subdural frontal, subaracnoideo e intraventricular, además de signos de probable edema cerebral.

escasa fuga aérea a través de los drenajes torácicos, por lo que se dejaron sin aspiración. A partir del cuarto día comenzó con exudación copiosa de aspecto seroso a través de los tubos de drenaje, así como cervicalgia, cefalea, cambio de carácter y desorientación temporoespacial. Con el diagnóstico de presunción de fístula de

LCR, se reintervino y se encontró un trayecto fistuloso en el orificio de conjunción de D3, que se obliteró con cera de hueso y sellante de fibrina (Tissucol® Baxter-Immuno AG). En la exploración radiológica con tomografía axial computarizada (TAC) craneal (fig. 1), se detectó un importante neumoencéfalo. Tras su drenaje y tratamiento con antibióticos (ceftriaxona) y corticoides, la evolución neurológica fue satisfactoria. Los drenajes torácicos se retiraron el cuarto día postoperatorio, el paciente presentó una buena evolución y se le dio de alta el noveno día tras control con TAC craneal y comprobarse la desaparición del neumoencéfalo.

A los 11 días del alta, acudió al servicio de urgencias por presentar fiebre de 48 h de evolución y cefalea holocraneal. Ante la sospecha de meningitis, se realizó punción lumbar y se obtuvo un LCR patológico (leucocitos: 1.500; polimorfonucleares: 90%; glucosa: 32) y cultivos negativos. En la TAC torácica se objetivó derrame pleural loculado apical izquierdo y basal, que se consideró un cambio posquirúrgico. El paciente presentó buena respuesta clínica al tratamiento antibiótico durante 21 días.

A los 4 días del alta volvió a ingresar por fiebre de 38 °C seguida de cefalea y rigidez de nuca. Una resonancia magnética craneal demostró signos de meningitis, lo que, junto a los nuevos datos del LCR, confirmó la existencia de una nueva meningitis aséptica. La exploración con resonancia magnética de la columna cervical y dorsal demostró signos de meningitis y una solución de continuidad en el mediastino posterior paravertebral izquierdo compatible con fístula en D2-D3 (fig. 2), lo que se confirmó con una cisternografía isotópica (con ácido dietilentriaminopentaacético marcado con tecnecio 99), en la cual se objetivó salida del radiofármaco desde el espacio subaracnoideo al pleural en la región posterolateral izquierda (fig. 3). Se practicó una nueva toracoto-

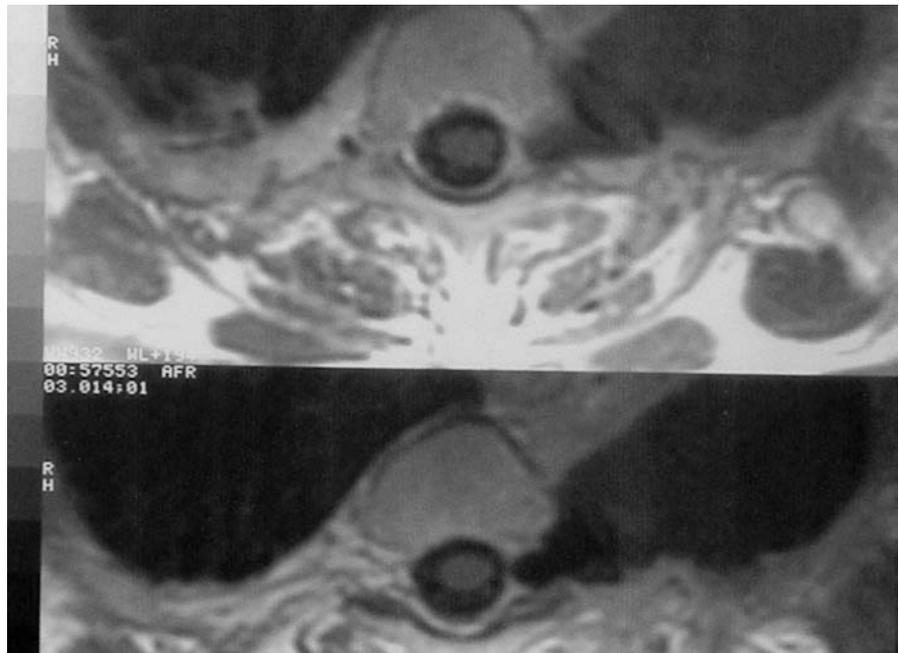


Fig. 2. Resonancia magnética dorsal (D2-D3). Se muestra una solución de continuidad en la región paravertebral izquierda compatible con fístula en dicha zona.



Fig. 3. Cisternografía isotópica (proyección lateral). Se aprecia salida del radiofármaco desde el espacio subaracnoideo espinal a la cavidad pleural.

mía sobre la cicatriz previa en la zona interescapulovertebral; se accedió a una cámara de líquido intra y extrapleural, y se encontró el orificio de la fístula parcialmente relleno de cera. Se procedió a su legrado y obturación con un colgajo libre de músculo y con un adhesivo quirúrgico (BioGlue®, CryoLife®). Se dejaron un drenaje torácico sin aspiración y un drenaje lumbar intradural para descompresión del LCR. La evolución posterior fue favorable y en el control de TAC craneocervicotorácica no se objetivaron hallazgos, salvo cambios posquirúrgicos torácicos. Se le dio de alta a los 10 días. En la última revisión, realizada a los 3 meses de la última cirugía, el paciente permanece afebril y asintomático.

## Discusión

Con este caso, son 18 los descritos en la bibliografía de fístula de LCR subaracnoideo-pleural con neumoencéfalo asociado, tras resección de tumores del *sulcus* superior. Nueve de ellos, incluido éste, recibieron radioterapia neoadyuvante<sup>2,3,5,7,13,14,16,17</sup>.

Tras la resección de este tipo de tumores, dada su localización, se pueden presentar complicaciones y secuelas específicas dependiendo de las estructuras invadidas. Cuando las costillas y las apófisis transversas están implicadas en el proceso neoplásico, se deben resecar en bloque con el tumor; en este caso, existe el riesgo de

provocar desgarros de la duramadre de las raíces nerviosas, sobre todo cuando está implicado el ángulo costovertebral<sup>15</sup>. Se ha descrito también su desgarramiento por fracturas costales durante la apertura de la toracotomía<sup>9</sup>. Probablemente existan más fístulas de LCR que las referidas en la bibliografía, ya que, si son pequeñas, se cierran de forma espontánea y permanecen asintomáticas. La radioterapia preoperatoria, por su posible efecto necrosante y la disminución de la capacidad de reparación de los tejidos irradiados, puede contribuir a la formación de la fístula, ya que el 50% de los casos descritos, incluido el nuestro, recibieron radioterapia neoadyuvante.

La combinación de fuga aérea pulmonar, motivo por el que en este caso se suspendió la aspiración en el frasco de drenaje, y la existencia de la fístula subaracnoideo-pleural ocasionaron probablemente la producción del neumoencéfalo. La mayoría de los neumoencéfalos descritos ocurrieron tras la retirada de los drenajes torácicos, y se apreció neumotórax en la radiografía de control.

Los síntomas iniciales del neumoencéfalo pueden aparecer de una a 8 semanas después de la cirugía y se caracterizan por cefalea (síntoma más común), alteraciones del estado mental y, en ocasiones, disminución del estado de conciencia. Además, puede haber náuseas, vómitos, vértigo, rigidez de nuca, afasia, disfasia o hemiplejía<sup>9</sup>. Se ha descrito un caso de hiponatremia en probable relación con un síndrome de secreción inadecuada de hormona antidiurética<sup>14</sup>. Además pueden existir los síntomas propios de un derrame pleural si los drenajes ya se habían retirado. El primer síntoma del caso aquí presentado fue la cervicalgia, que apareció a los 4 días de la cirugía, seguida de cefalea y alteraciones del comportamiento. La sospecha de fístula se basó en el abundante débito del drenaje pleural unido al deterioro del estado mental. La meningitis es la complicación más frecuente de las fístulas de LCR, y fue lo que llevó a sospechar su recidiva.

Otras pruebas complementarias descritas para confirmar la existencia de una fístula se basan en el análisis del líquido pleural, con características de un trasudado cristalino con escasas células, glucosa normal y contenido proteico bajo, y la medición de la fracción de ferritina específica del sistema nervioso central, aunque procesos concomitantes en el espacio pleural pueden condicionar falsos negativos<sup>10,19</sup>. Además se ha utilizado la administración intratecal de un tinte, como la fluoresceína o el índigo carmín, y su recuperación posterior en los drenajes torácicos<sup>9</sup>. Sin embargo, la prueba diagnóstica definitiva y que además localiza la fístula es la mielografía seguida de TAC (mielo-TAC); se ha demostrado que tiene mejor resolución espacial que los estudios isotópicos<sup>8,9,19,20</sup>. No obstante, en este caso, y en varios de los descritos en la bibliografía, la cisternografía radioisotópica fue suficiente para establecer el diagnóstico<sup>2,3,7,20</sup>. La mielografía simple con contraste hidrosoluble puede dar falsos negativos<sup>2,3,7-9</sup> y la TAC sola no puede demostrar su localización. En el caso que se presenta evidenció únicamente localizaciones pleurales consideradas cambios posquirúrgicos. La resonancia magnética sí demostró mejor definición anatómica de la zona de la fístula (D2-D3).

En cuanto al tratamiento, si la fístula se reconoce durante la toracotomía, debe repararse mediante ligadura con suturas absorbibles o, para mayor seguridad, con oclusión de la fístula mediante un colgajo muscular vascularizado, un injerto muscular libre o un injerto de grasa. Se han descrito 2 casos de obliteración exitosa de fístula tras cirugía espinal mediante el uso de omento pediculado transdiafragmático<sup>20</sup>. Además, se pueden usar sellantes como cera de hueso, sellante de fibrina o metilmetacrilato, aunque su uso en grandes cantidades puede producir compresión de la médula espinal. No se debe utilizar Surgicel® o Gelfoam®, ya que se ha descrito su migración y expansión postoperatoria, causando compresión medular y paraplejía<sup>21</sup>. Para poner de manifiesto una fuga de LCR que no se aprecie claramente, se puede realizar una compresión yugular o una maniobra de Valsalva.

Si el diagnóstico se realiza durante el postoperatorio, el tratamiento debe individualizarse, dependiendo del estado neurológico del paciente. Se han publicado resoluciones espontáneas de la fístula con tratamiento conservador, probablemente en fístulas de pequeño tamaño, con reposo en cama y drenaje torácico<sup>1,4,11,12,17</sup>, drenaje lumbar<sup>15</sup> cuando no existe neumoencéfalo, y se ha descrito también el drenaje lumboperitoneal<sup>5</sup>. Cuando existe neumoencéfalo a tensión con afectación neurológica, se debe drenar. Si a pesar del tratamiento conservador la fístula persiste (que será lo más frecuente), está indicada la reparación quirúrgica, como se ha descrito previamente, y tratamiento antibiótico para prevenir complicaciones infecciosas como la meningitis. Además del abordaje mediante toracotomía o toracoplastia<sup>2,3</sup>, dependiendo de la localización del desgarró dural, se puede realizar una laminectomía posterior<sup>8,9,11,19</sup> y colocación de un parche intra<sup>7</sup> o extradural. En nuestro caso, el primer abordaje no fue eficaz, con recidiva de la fístula, y la utilización del colgajo muscular y BioGlue® fue útil para su resolución definitiva. Durante el postoperatorio, es importante el reposo en cama y la descompresión del espacio subaracnoideo mediante un drenaje lumbar.

En resumen, es importante sospechar la existencia de una fístula de LCR tras una toracotomía, cuando exista un débito claro abundante a través de los drenajes torácicos y se aprecien cambios en el estado mental del paciente. Además, la existencia de una meningitis en un postoperatorio, aunque sea tardío, debe hacer sospechar la existencia de una fístula. Lo más importante es su prevención durante la cirugía, con ligadura de las raíces nerviosas, cuando se resequen tumores de la zona paravertebral. La cisternografía isotópica puede ayudar a confirmar el diagnóstico, si bien es la mielo-TAC la exploración diagnóstica definitiva para su demostración y localización.

## Agradecimientos

Agradecemos a BioGlue® CryoLife® (Palex Medical, S.A.) la pronta disponibilidad del adhesivo quirúrgico tras nuestra solicitud, y al Servicio de Neurocirugía sus acertados consejos sobre el tratamiento de este tipo de fístulas.

## BIBLIOGRAFÍA

1. D'Addario R, Greenberg J, O'Neill TJE, Spagna P. Pneumocephalus: an unusual case. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1975;37:271-4.
2. Labadie EL, Hamilton RH, Lundell DC, Bjelland JC. Hypoliquorrheic headache and pneumocephalus caused by thoraco-subarachnoid fistula. *Neurology* 1977;27:993-5.
3. Hofstetter KR, Bjelland JC, Patton DD, Woolfenden JM, Henry RE. Detection of bronchopleural-subarachnoid fistula by radionuclide myelography: case report. *J Nucl Med* 1977;18:981-3.
4. Frantz PT, Battaglini JW. Subarachnoid-pleural fistula. Unusual complication of thoracotomy. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1980;79:873-5.
5. Katz SS, Savitz MH, Osei C, Harris L. Successful treatment by lumboperitoneal shunting of a spinal subclavicular fistula following thoracotomy. *Neurosurgery* 1982;11:795-6.
6. Reid AC, Davidson KG, Grossart KW, Durward WF. Spontaneous pneumocephalus following elective thoracotomy. *Aust NZJ Med* 1982;12:67-9.
7. Da Silva VF, Shamji FM, Reid RH, Del Carpio-O'Donovan R. Subarachnoid-pleural fistula complicating thoracotomy: case report and review of the literature. *Neurosurgery* 1987;20:802-5.
8. Assietti R, Kibble MB, Bakay RAE. Iatrogenic cerebrospinal fluid fistula to the pleural cavity: case report and literature review. *Neurosurgery* 1993;33:1104-8.
9. Brown WM, Symbas PN. Pneumocephalus complicating routine thoracotomy: symptoms, diagnosis and management. *Ann Thorac Surg* 1995;59:234-6.
10. Quereshi NM, Roble DC, Gindin RA, et al. Subarachnoid-pleural fistula. Case report and review of the literature. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1986;91:238-41.
11. Bilsky MH, Downey RJ, Kaplitt MG, Elowitz EH, Rush VW. Tension pneumocephalus resulting from iatrogenic subarachnoid-pleural fistulae: report of three cases. *Ann Thorac Surg* 2001;71:455-7.
12. Malca SA, Roche PH, Touta A, Pellet W. Pneumocephalus after thoracotomy. *Surg Neurol* 1995;43:398-401.
13. Sonett JR, Krasna MJ, Suntharalingam M, et al. Safe pulmonary resection after chemotherapy and high-dose thoracic radiation. *Ann Thorac Surg* 1999;68:316-20.
14. Boyev P, Krasna MJ, White CS, McLaughlin JS. Subarachnoid-pleural fistula after resection of a Pancoast tumor with hyponatremia. *Ann Thorac Surg* 1995;60:683-5.
15. Vallières E, Karmy-Jones R, Mulligan MS, Wood DE. Pancoast tumors. *Curr Probl Surg* 2001;38:333-61.
16. Maggi G, Casadio C, Pischetta F, et al. Combined radiosurgical treatment of Pancoast tumor. *Ann Thorac Surg* 1994;57:198-202.
17. Sartori F, Rea F, Calabro F, Mazucco C, Bortolotti L, Tomio L. Carcinoma of the superior pulmonary sulcus. Results of irradiation and radical resection. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1992;104:679-83.
18. Sarwal V, Suri RK, Sharma OP, et al. Traumatic subarachnoid-pleural fistula. *Ann Thorac Surg* 1996;62:1622-6.
19. Lloyd C, Sahn SA. Subarachnoid pleural fistula due to penetrating trauma. Case report and review of the literature. *Chest* 2002;122:2252-6.
20. Heller JG, Kim HS, Carlson GW. Subarachnoid-pleural fistulae. Management with a transdiaphragmatic pedicled greater omental flap. Report of two cases. *Spine* 2001;26:1809-13.
21. Short HD. Paraplegia associated with the use of oxidized cellulose in posterolateral thoracotomy incisions. *Ann Thorac Surg* 1990;50:288-90.