

Fractura de extensión de electrodos en estimulación cerebral profunda para distonía cervical: reporte de caso y revisión de la literatura

Extension electrode fracture in deep brain stimulation for cervical dystonys: a case and literature review

Fabián Cremaschi¹, Emmanuel Alejandro Vázquez², Fabián Piedimonte³

1. Médico Neurocirujano. Se desempeña en el Área de Neurología clínica y quirúrgica. Departamento de Neurociencias de la Facultad de Ciencias Médicas (FCM) de la UNCuyo. Vicepresidente de la FCM-UNCuyo (2014-2018). / 2. Neurocirujano. Especialista en tratamientos del dolor. / 3. Fundación Cenit para la Investigación en Neurociencias. Universidad de Buenos Aires, Buenos Aires, Argentina.

RESUMEN

Introducción: La estimulación cerebral profunda (ECP) es utilizada como un método eficaz, adaptable y reversible para el tratamiento de diversas condiciones neurológicas. A pesar de su concepto mínimamente invasivo, estos procedimientos no se encuentran exentos de complicaciones así como de fallas relacionadas al sistema. Su reconocimiento y comunicación es fundamental para futuras mejoras en la tecnología del hardware, y también para el diagnóstico precoz y el manejo adecuado de eventos similares.

Caso clínico: Presentamos el caso de un paciente portador distonía cervical secundaria al uso de neurolépticos asociada a trastorno obsesivo compulsivo, que recibió el implante de electrodos cerebrales profundos en ambos globos pálidos internos. Evolucionó con brusca reaparición de los síntomas por la rotura de los cables extensores en dos oportunidades. Describimos la resolución del caso mediante la colocación de extensores expandibles y la reubicación del generador en el espacio interescapular, así como una revisión actualizada de la literatura.

Discusión: Las complicaciones relacionadas al hardware no conllevan una alta tasa de morbilidad ni mortalidad, pero sí un impacto en la mejoría clínica del paciente y un alto costo económico agregado. Las diferentes comunicaciones reportan desde la ausencia de fractura de electrodos y extensores, hasta una incidencia que supera el 15%, siendo más

SUMMARY

Introduction: Deep brain stimulation is used as an effective, adaptable and reversible method for the treatment of various neurological conditions. Despite its minimally invasive concept, these procedures are not exempt from complications as well as system-related failures. The recognition and report of these complications is fundamental for future improvements in hardware technology, and also for the early diagnosis and proper handling of similar events.

Clinical case: We present a 26-year-old patient with cervical dystonia secondary to the use of neuroleptics and associated with obsessive compulsive disorder, who received bilateral implant of deep cerebral electrodes in Globus Pallidus Internus nucleus for chronic stimulation with a positive outcome. The patient evolved with a sudden reappearance of the symptoms due to the rupture of the extensor cables on two occasions. We describe the resolution of the case through the placement of expandable extensors and the relocation of the generator in the interscapular region, as well as an updated review of the literature.

Discussion: Complications related to hardware do not entail a high rate of morbidity or mortality, but an impact on the clinical improvement of the patient and a high added economic cost. Different publications report from the absence of fracture of electrodes and extensors, to an incidence that exceeds 15%, being more frequent to observe electrodes or extensors fractures in the

frecuente observar la fractura de los electrodos en la zona del cuello en aquellos pacientes que presentan movimientos involuntarios bruscos.

Conclusión: La colocación del generador en una zona alejada del conflicto, como así también la utilización de las extensiones expandibles, pueden ser una solución para ciertos pacientes.

Palabras clave: estimulación cerebral profunda, distonía, cables extensores, interescapular.

neck area in those patients who present sudden involuntary movements.

Conclusion: The placement of the generator in an area far from the problematic region, as well as the use of expandable extensions, can be a solution for certain patients.

Key words: deep brain stimulation, dystonia, extensor cables, interscapular.



INTRODUCCIÓN

La estimulación cerebral profunda (ECP) es utilizada como un método eficaz, adaptable y reversible para el tratamiento de los trastornos del movimiento, especialmente la enfermedad de Parkinson (EP)¹, la distonía² y el temblor³⁻⁵, mientras que una amplia gama de indicaciones psiquiátricas continúa surgiendo⁶⁻⁷. Sin embargo, es fundamental recalcarlo, este procedimiento considerado funcional tiene, como objetivo principal, aliviar los síntomas del paciente en lugar de tratar la causa subyacente. Como tal, las complicaciones no son fácilmente toleradas por el cirujano ni por los pacientes. Al mismo tiempo la ECP lleva una carga económica significativa, principalmente en países en vías de desarrollo como Argentina, que puede incrementarse considerablemente cuando surgen eventos adversos. Una complicación potencial y relativamente frecuente de este procedimiento está relacionada con los problemas relacionados al hardware, que podrían presentarse como una falla en el generador, los electrodos profundos o a nivel de los cables extensores. Así, podemos observar que ante el significativo incremento en el número de cirugías de ECP alrededor del mundo se comenzaron a reportar crecientes series orientadas a los diversos tipos y frecuencias en la aparición de complicaciones⁸⁻¹⁷. Estos informes son importantes, ya que proporcionan una base no sólo para futuras mejoras en la tecnología de hardware, sino también para el diagnóstico precoz y el manejo adecuado de eventos similares. Aquí presentamos el caso de un paciente con distonía cervical, el cual sufrió reiteradas complicaciones con el hardware y describimos la resolución específica que le dio el equipo quirúrgico, así como una revisión actualizada de la literatura.

DESCRIPCIÓN DEL CASO

El paciente, de sexo masculino, 26 años de edad, con antecedentes de trastorno obsesivo compulsivo (TOC) refractario a tratamiento farmacológico, intercorre con un cuadro de distonía cervical secundaria a la utilización de fármacos neurolépticos en forma de retrocolis severo. En el año 2012 se decide realizar capsulotomía anterior bilateral para tratamiento de TOC y lesión estereotáctica por radiofrecuencia de globo pálido interno (GPi) derecho para tratamiento de su distonía cervical (Figura 1), dado los antecedentes de su potencial eficacia²⁻¹⁸. El paciente evolucionó con notable mejoría sintomática de ambas patologías, con un sustancial beneficio en su calidad de vida (Figura 2). En noviembre del año 2015 evoluciona con empeoramiento de su retrocolis refractario a tratamientos farmacológicos y ortésicos. Se decide realizar ECP del GPi de manera bilateral con significativa mejoría de su distonía, traducida en la recuperación de la postura cefálica prácticamente a rangos de normalidad. En mayo de 2016 el paciente presenta un empeoramiento súbito de su cuadro distónico cervical (Figura 3) verificando una falla en el sistema de ECP. Se decide proceder a una revisión del sistema constatando disfunción de los extensores de conexión entre los electrodos cerebrales y el generador, por lo cual se reemplazan por nuevos cables extensores. El informe entregado por el

departamento técnico de la empresa fabricante constató fractura interna de las extensiones, considerando al retrocolis responsable de este evento. En enero de 2017 se produce una nueva interurrencia repentina en sus síntomas por falla del hardware. Se decide realizar una nueva intervención en la que se verifica nueva falla del sistema de extensiones a nivel cervical y se procede a transportar el estimulador desde la región infraclavicular derecha al espacio interescapular (Figuras 4 y 5), y además utilizando extensores expandibles. El paciente experimentó una franca mejoría de sus síntomas distónicos, con estabilidad a la fecha e indemnidad del sistema de ECP.

DISCUSIÓN

La ECP ha sido comprobada como un tratamiento efectivo y seguro para numerosas patologías neurológicas. Sin embargo, no deja de ser un tratamiento electivo sintomático que no cura la enfermedad de base; por eso, complicaciones relacionadas a estos procedimientos suelen ser mal tolerados por el paciente, así como también demandar un alto costo económico. En la literatura existen numerosos reportes sobre complicaciones en ECP, algunos informan una significativa incidencia del 6% de secuelas neurológicas graves¹⁴⁻¹⁶. Las complicaciones relacionadas al hardware no conllevan una alta tasa de morbilidad ni mortalidad, pero sí un impacto en la mejoría clínica del paciente y un alto costo económico agregado. En la literatura, las complicaciones afines al hardware se definen como todos aquellos inconvenientes relacionados al sistema de ECP como las infecciones -que pueden llegar aproximadamente al 6%-¹⁹, la fractura de electrodos o extensiones, y el mal posicionamiento o migraciones de los electrodos cerebrales. Las series de reportes de complicaciones en ECP publican, desde la ausencia de fractura de electrodos y extensores, hasta una incidencia del 15,2% como lo ha comunicado Kondziolka et al²⁰. Los reportes indican que es más frecuente observar la fractura de los electrodos en la zona del cuello en aquellos pacientes que presentan movimientos involuntarios bruscos, transmitiendo una alta tensión al sistema. Creemos que el paciente reportado sufrió este tipo de fractura por los movimientos de tortícolis posterior, determinando sobre el sistema una fuerza de estiramiento excesiva. La colocación del generador de estimulación en la zona interescapular no es una práctica frecuente,

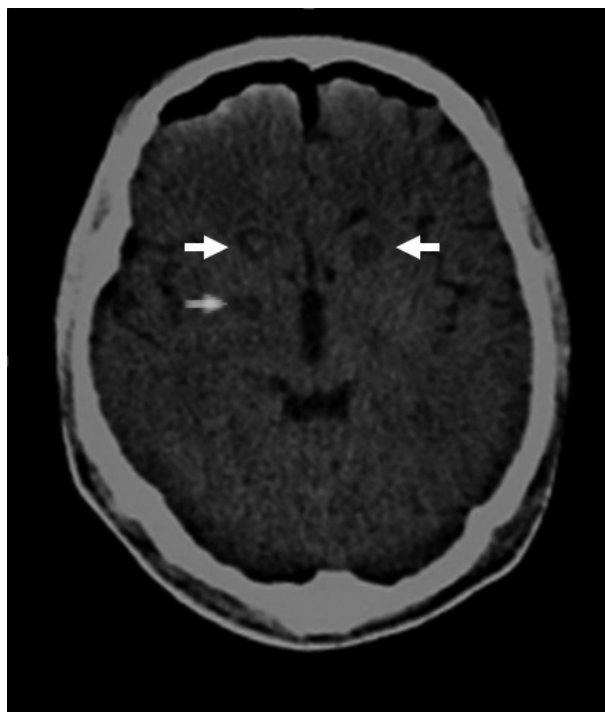


Figura 1. Estudio de tomografía computada postquirúrgica, corte axial. Las flechas blancas revelan la capsulotomía bilateral para el tratamiento de los síntomas del trastorno obsesivo compulsivo (TOC). La flecha gris indica la lesión del globo pálido interno (GPi) derecho para el tratamiento de los síntomas distónicos y de agresividad.



Figura 2. Imagen de perfil del paciente (a) Retrocoli, distonía cervical preoperatoria y (b) mejoría postoperatoria significativa de la posición distónica, a los pocos días de la cirugía, como consecuencia de la palidotomía unilateral.



Figura 3. Imagen de perfil del paciente. Retrocoli extremo de brusca aparición como consecuencia de del cese de la terapia de estimulación cerebral profunda, secundario a la ruptura de los cables extensores.



Figura 4. Imagen del paciente, vista posterior. Se aprecia la silueta del generador implantado en la región dorsal derecha y franca mejoría del cuadro distónico cervical.

algunas publicaciones proponen la colocación del generador en la región abdominal, principalmente en pacientes portadores de marcapasos cardíacos previamente implantados para evitar interacción entre ambos dispositivos²¹. En esta oportunidad descrita, el implante del generador en la región dorsal interescapular tuvo como objetivo evitar el mecanismo de estiramiento que sufrían las extensiones con la postura de retrocoli extremo adoptada por el paciente. Como es conocido, a diferencia de lo observado en pacientes intervenidos por enfermedad de Parkinson, en los portadores de disfonía el control de los síntomas con ECP suele ser gradual, progresivo y lento. De esta manera, en muchos casos son necesarios períodos prolongados, inclusive varios meses para obtener un beneficio ostensible sobre los síntomas distónicos.

Adicionalmente, fueron utilizados cables extensibles con la propiedad de extenderse hasta un 30% de su longitud inicial ante

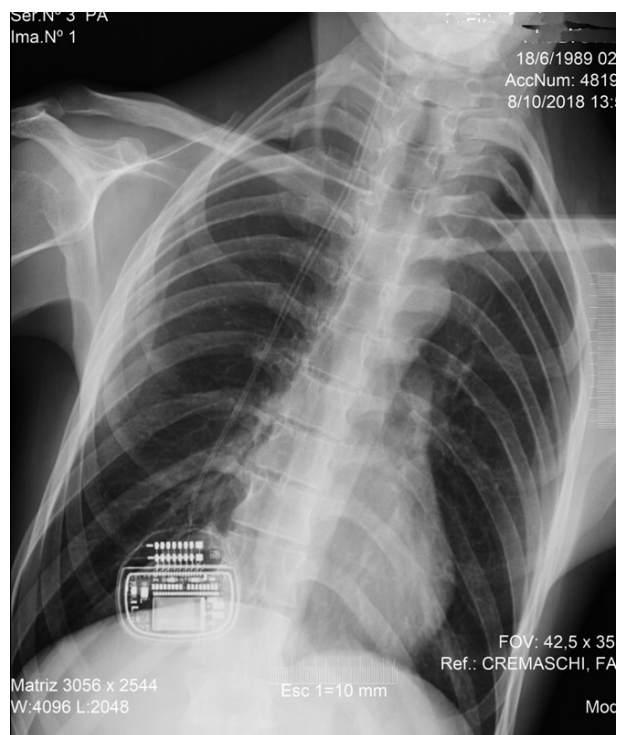


Figura 5. Radiografía de torax incidencia anteroposterior. Visualización del generador implantado en la región dorsal derecha, próximo al ángulo inferior de la escápula y los cables extensores expandibles.

situaciones de estiramiento, permitiendo un margen mayor de seguridad ante los movimientos bruscos del paciente. Con estas medidas se logró evitar la repetición de la complicación sufrida previamente por el paciente que interfirió oportunamente con el adecuado tratamiento y control de los síntomas.

CONCLUSIÓN

La estimulación cerebral profunda es una técnica quirúrgica que provee soluciones sintomáticas para numerosas patologías neurológicas, pero no está exenta de complicaciones. La adecuada resolución de las mismas es una obligación para todo equipo interdisciplinario que realice estos procedimientos. La fractura de los electrodos o sus extensiones por movimientos bruscos no es algo infrecuente y consideramos que la colocación del generador en una zona alejada del conflicto (zona interescapular, como en este caso), como así también la utilización de las extensiones expandibles, pueden ser una solución para ciertos pacientes. ♦

REFERENCIAS

1. Krack P, Batir A, Van Blercom N, Chabardes S, Fraix V, Ardouin C, et al. Five-year follow-up of bilateral stimulation of the subthalamic nucleus in advanced Parkinson's disease. *N Engl J Med* 2003;349:1925-34.
2. Cif L, El Fertit H, Vayssiere N, Hemm S, Hardouin E, Gannau A, et al. Treatment of dystonic syndromes by chronic electrical stimulation of the internal globus pallidus. *J Neurosurg Sci* 2003;47:52-5.
3. Benabid AL, Pollak P, Gervason C, Hoffmann D, Gao DM, Hommel M, et al. Long-term suppression of tremor by chronic stimulation of the ventral intermediate thalamic nucleus. *Lancet* 1991;337:403-6.
4. Benabid AL, Pollak P, Louveau A, Henry S, de Rougemont J. Combined (thalamotomy and stimulation) stereotactic surgery of the VIM thalamic nucleus for bilateral Parkinson disease. *Appl Neurophysiol* 1987;50:344-6.
5. Berk C, Carr J, Sindén M, Martzke J, Honey CR. Thalamic deep brain stimulation for the treatment of tremor due to multiple sclerosis: a prospective study of tremor and quality of life. *J Neurosurg* 2002;97:815-20.
6. Denys D, Mantione M, Figee M, van den Munckhof P, Koerselman F, Westenberg H, et al. Deep brain stimulation of the nucleus accumbens for treatment-refractory obsessive-compulsive disorder. *Arch Gen Psychiatry* 2010;67:1061-8.
7. Houeto JL, Karachi C, Mallet L, Pillon B, Yelnik J, Mesnage V, et al. Tourette's syndrome and deep brain stimulation. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2005;76:992-5.

8. Kondziolka D, Whiting D, Germanwala A, Oh M. Hardware- related complications after placement of thalamic deep brain stimulator systems. *Stereotact Funct Neurosurg* 2002;79:228-33.
9. Lyons KE, Wilkinson SB, Overman J, Pahwa R. Surgical and hardware complications of subthalamic stimulation: a series of 160 procedures. *Neurology* 2004;63(4):612-6.
10. Alesch F. Sudden failure of dual channel pulse generators. *Mov Disord* 2005;20(1):64-6.
11. Chou KL, Siderowf AD, Jaggi JL, Liang GS, Baltuch GH. Unilateral battery depletion in Parkinson's disease patients treated with bilateral subthalamic nucleus deep brain stimulation may require urgent surgical replacement. *Stereotact Funct Neurosurg* 2004;82(4):153-5.
12. Machado AG, Hiremath GK, Salazar F, Rezai AR. Fracture of subthalamic nucleus deep brain stimulation hardware as a result of compulsive manipulation: case report. *Neurosurgery* 2005;57(6):13-8.
13. Okun MS, Tagliati M, Pourfar M, et al. Management of referred deep brain stimulation failures: a retrospective analysis from 2 movement disorders centers. *Arch Neurol* 2005;62(8):1250-5.
14. Beric A, Kelly PJ, Rezai A, Sterio D, Mogilner A, Zonenshayn M, Kopell B. Complications of deep brain stimulation surgery. *Stereotact Funct Neurosurg* 2001;77:73-8.
15. Binder DK, Rau GM, Starr PA. Risk factors for hemorrhage during microelectrode-guided deep brain stimulator implantation for movement disorders. *Neurosurgery* 2005;56:722-32.
16. Umemura A, Jaggi JL, Hurtig HI, Siderowf AD, Colcher A, Stern MB, Baltuch GH. Deep brain stimulation for movement disorders: morbidity and mortality in 109 patients. *J Neurosurg* 2003;98:779-84.
17. Fenoy AJ, Simpson Jr RK. Risks of common complications in deep brain stimulation surgery: management and avoidance. *J Neurosurg* 2014;120(1):132-9.
18. Vidailhet M, Vercueil L, Houeto JL, Krystkowiak P, Benabid AL, Cornu P, et al. Bilateral deep-brain stimulation of the globus pallidus in primary generalized dystonia. *N Engl J Med* 2005;352:459-67.
19. Boviatsis EJ, Stavrinou LC, Themistocleous M, Kouyialis AT, Sakas DE. Surgical and hardware complications of deep brain stimulation. A seven-year experience and review of the literature. *Acta neurochirurgica* 2010;152(12):2053-62.
20. Kondziolka D, Whiting D, Germanwala A, Oh M. Hardware-related complications after placement of thalamic deep brain stimulator systems. *Stereotact Funct Neurosurg* 2002;79:228-33.
21. Senatus PB, McClelland III S, Ferris AD, Ford B, Winfield LM, Pullman SL, Goodman RR. Implantation of bilateral deep brain stimulators in patients with Parkinson disease and preexisting cardiac pacemakers: report of two cases. *J Neurosurg* 2004;101(6):1073-7.