

Moro-Álvarez MJ¹, Sanz Baena S¹, Lacasa Marzo J¹, Albéniz Aguiriano L², Sanz Continente MJ², Sarró Cañizares M²

1 Servicio de Medicina Interna - Hospital Central de la Cruz Roja - Madrid

2 Servicio de Radiodiagnóstico - Hospital Central de la Cruz Roja - Madrid

Diagnóstico diferencial y manejo del dolor asociado a hemangiomas vertebrales múltiples. A propósito de un caso

Correspondencia: M^a Jesús Moro Álvarez - Unidad de Metabolismo Mineral Óseo - Servicio de Medicina Interna - Hospital Central Cruz Roja - Avda. Reina Victoria, 22-26 - 28003 Madrid
Correo electrónico: mjmorohccruz@salud.madrid.org

Caso clínico

Presentamos el caso de una mujer de 71 años de edad con antecedentes de epilepsia, hiperlipemia mixta, síndrome depresivo y osteoporosis establecida, con fractura previa de Colles izquierda a los 52 años. Seguía tratamiento con Ácido Valproico 750 mg/día, Atorvastatina 40 mg/día, Trazodona 100 mg/día, Omeprazol 20 mg/día, Risedronato semanal (35 mg) y suplementos de calcio y vitamina D (500 mg de calcio elemento y 400 UI de vitamina D).

Desde al menos hacía 10 años presentaba dolores de espalda, que mejoraban sólo parcialmente con el reposo y en ocasiones la despertaban en la noche, tanto de localización dorsal como lumbar. Que habían aumentado progresivamente de intensidad, con lo que le interferían con las actividades básicas de la vida diaria. Estudiada cinco años antes en otro Centro por este motivo, no se había llegado a un diagnóstico concluyente. Se había realizado una Resonancia Magnética Nuclear (RMN) de columna donde se describían varias lesiones de carácter lítico sugerentes de metástasis a nivel D6-D8. No obstante, tras un estudio exhaustivo que incluía gammagrafía ósea, tomografía axial computerizada (TAC) toracoabdominal, mamografía, marcadores tumorales, proteinograma y ecografía tiroidea, no se encontró

tumor primario y se prescribió sólo tratamiento analgésico. Por ello utilizaba habitualmente Fentanilo transdérmico (TTS) 100 µg/h cada 72 h, Metamizol 575 mg (3 caps./día) y Gabapentina 300 mg/día.

Acude a nuestra consulta por aumento en la intensidad de estos mismos dolores de espalda, fundamentalmente en los últimos meses, sin claro síndrome constitucional asociado ni trauma previo, así como disminución del ánimo. No tenía fiebre termometrada, conservaba fuerza y movilidad, pudiendo caminar sin ayuda, y no presentaba trastornos sensitivos a ningún nivel.

En la exploración física no existía nada reseñable, salvo el dolor a la percusión de apófisis dorsales medias irradiado a costado derecho, sin masa de partes blandas palpable. La exploración neurológica era rigurosamente normal.

En los análisis realizados presentaba discreta anemia normocítica normocrómica (hemoglobina 10,8 g/dL, hematócrito 31,7%, VCM 91,8 fL), con normalidad en el resto de las series del hemograma y con una velocidad de sedimentación globular (VSG) de 35 mm (no hace falta poner la segunda hora). Los tiempos de coagulación y la bioquímica (que incluía metabolismo del hierro, perfil hepático y lipídico, proteinograma, hormonas tiroideas y niveles de vitamina B12) eran norma-

les. Lo mismo ocurría con el análisis elemental de orina. Se realizó Mantoux y serología de *Salmonella* y *Brucella*, siendo ambas pruebas negativas. Así mismo, los niveles de antiestreptolisina-O (ASLO) eran menores de 200.

Se realizaron las siguientes pruebas de imagen: 1. Una radiografía de tórax, sin patología mediastínica aparente, con múltiples opacidades lineales pulmonares basales en ambos campos pulmonares compatibles con atelectasias laminares por hipoventilación. A nivel óseo, en la Rx simple de columna existía una afectación D6-D7-D8 con colapso parcial de cuerpos vertebrales y esclerosis, con erosiones, de las superficies de los platillos vertebrales. 2. TAC de columna dorsolumbar, donde se observaba una lesión lítica, de borde bien definido, en la porción lateral derecha del cuerpo de D8, con algún punto de grasa en su interior que sugería la posibilidad de hemangioma vertebral (Figura 1). Así mismo existían otras imágenes compatibles con hemangiomas vertebrales en D12 y L1, en concreto en la porción lateral derecha del cuerpo vertebral, rodeadas de esclerosis (Figura 2). Llamaba la atención una masa de partes blandas, en el espacio paraespinal bilateral y prevertebral, en el reformateo coronal y en los cortes axiales. 3. RMN donde se observaban múltiples lesiones de hiperseñal, afectando fundamentalmente a las vértebras D5 a D9, así como a D11 y, en región lumbar, a L4 y L5. Había a su vez una afectación importante de los cuerpos D6, D7 y D8 con baja señal en secuencias T1, y discreta hiperseñal en secuencias T2, con mínimo aumento de partes blandas prevertebral y pequeño manguito epidural anterolateral derecho, sin producir compresión sobre la médula dorsal baja. Se describían, también, imágenes hiperintensas en secuencias T1 y T2 en los cuerpos vertebrales de L4, L2, D12 y D8 en la mitad derecha, que podrían estar en relación con angiomas y/o lipomas. 4. Gammagrafía ósea con HDP-Tc-99m, que mostró un incremento del depósito a nivel de vértebras D7 a D9, pudiendo tratarse de aplastamientos vertebrales, y en ambas articulaciones esternoclaviculares. Asimismo, se evidenció una hipercaptación a nivel de L4 y L5, con una posible área fría central en L5. En la exploración con Galio se puso de manifiesto una actividad fisiológica, sin evidencias de focos de hipercaptación coincidentes con los depósitos descritos en el estudio con HDP-Tc-99m. En conjunto, la exploración traducía un notable incremento de la actividad osteoblástica en las regiones señaladas, sin hiperemia ni signos inflamatorios acompañantes.

Ante las nuevas dudas planteadas, sobre un diagnóstico previo de hacía más de cinco años, se decidió realizar biopsia ósea de cuerpos vertebrales L4 y D5. En el estudio anatomopatológico se observaron trabéculas óseas engrosadas, con abundantes líneas cementantes. No se observaron atipias. Los espacios medulares estaban ocupados por un tejido conjuntivo preferentemente laxo y no existían infiltrados ni células tumorales. Se realizó también estudio microbiológico de las muestras (baciloscopia, cultivos específicos para bacte-

rias, mycobacterias y hongos), que igualmente resultó negativo.

En resumen, tras la reevaluación del caso, el cuadro de dolor crónico de espalda de años de evolución y aplastamientos vertebrales múltiples fue catalogado como hemangiomatosis vertebral múltiple, manifestada, sobre todo, por dolor debido a la expansión ósea y/o colapso vertebral.

Una vez valoradas las distintas opciones terapéuticas se optó por la radioterapia de D8 y D12 con una dosis total administrada de 30 Gy. Con ello la paciente evolucionó favorablemente, disminuyendo el dolor y la dosis requerida de analgesia.

Discusión

Los hemangiomas son tumores benignos de origen vascular con escasa metaplasia maligna, pero en ocasiones de comportamiento agresivo. En realidad, no se trata de una neoplasia verdadera, sino de una anomalía congénita originada por el secuestro embrionario del tejido mesodérmico. Estas yemas proliferan dando lugar a masas que recuerdan el tejido neoplásico.

Los hemangiomas vertebrales tienen una incidencia del 11% en la población general. Corresponden al 1% de todas las neoplasias de hueso, su frecuencia aumenta con la edad, se diagnostican generalmente en adultos o ancianos y son más comunes en mujeres¹⁻³.

A menudo se trata de lesiones únicas localizadas en un solo cuerpo vertebral, aunque también pueden extenderse hacia el arco posterior. Menos frecuentemente existen casos con afectación de varios cuerpos vertebrales. El segmento torácico suele ser el más afectado. Sólo un 0,9-1,2% son sintomáticos. De éstos, el 54% cursa con dolor, y el 45% con manifestaciones neurológicas como pueden ser la compresión medular y/o radicular, generalmente de carácter subagudo. No obstante, la posibilidad de crecimiento o extensión de un hemangioma vertebral es extremadamente baja, debido a que es poco frecuente que estos tumores rompan la cortical.

El diagnóstico diferencial, sobre todo en el caso de hemangiomas vertebrales múltiples, se debe realizar con la enfermedad de Paget, metástasis óseas, tumores hematológicos como mieloma o leucemia, y otros tumores de origen vascular, como el hemangioblastoma o el hemangioendoteloma. A menudo las imágenes radiológicas son diagnósticas. Sin embargo, como existen hemangiomas con patrones de imagen distintos, ocasionalmente es necesario el diagnóstico histológico^{2,3}.

En nuestro caso es de destacar la orientación diagnóstica inicial que se le concedió en los primeros exámenes realizados por otro Centro. Sin embargo, en el nuestro se consideró que el tiempo transcurrido y la ausencia de datos orientadores hacia un proceso tumoral el diagnóstico más probable era el de hemangiomas múltiples.

La radiología simple de un hemangioma vertebral ofrece una imagen que depende de la localización. En la columna se observa un patrón para-

Figura 1. TAC Columna. Corte Axial a nivel D8 donde se observa lesión lítica de borde bien definido en la porción lateral derecha del cuerpo vertebral, que contiene algún punto de grasa en su interior que sugiere la posibilidad de hemangioma vertebral



Figura 2. TAC Columna dorsal. Reformateo Coronal donde se observan lesiones líticas de contornos bien definidos, rodeadas de esclerosis en múltiples cuerpos vertebrales, fundamentalmente D6-D8, D10 y D13, compatibles con hemangiomas vertebrales



lelo, vertical, de líneas estriadas que, como imagen característica, como estriaciones en “celda de cárcel”, que se puede asemejar a un panal de abejas (*boney comb*). Generalmente se encuentran a nivel torácico inferior y no causan crecimiento del cuerpo vertebral⁴.

En la TAC las trabéculas gruesas óseas se ven en los cortes como “espinas de hueso” muy características, siendo la técnica habitual que mejor define la arquitectura ósea y el mejor método diagnóstico de imagen⁵.

En la RMN aparecen como imágenes de vacío o de hiperintensidad en relación con la presencia de tejido adiposo, vasos sanguíneos y edema. Se ha descrito la posibilidad de alteraciones en los espacios y partes blandas adyacentes cuando existen rupturas parciales con hemorragia de estos hemangiomas. Estas imágenes pueden plantear el diagnóstico diferencial incluso con una osteomielitis vertebral. La RMN es esencial en caso de existir mielopatía, ya que es posible visualizar el tejido nervioso y el tejido compresivo; además, sirve como estudio pronóstico ya que las imágenes isointensas en T1 e hiperintensas en T2 se asocian a hipervascularidad e incremento del potencial de compresión medular⁶.

Las opciones terapéuticas para los casos de hemangiomas múltiples sintomáticos son: radioterapia, embolización endovascular, infiltración de cuerpo vertebral con etanol, vertebroplastia o bien procedimientos quirúrgicos como laminectomía descompresiva y resección del cuerpo vertebral, si se precisara^{7,8}.

La embolización es un método temporal para disminuir el riesgo de hemorragia, aunque existe riesgo de que la arteria nutricia sea común a la vertebral y se provoque isquemia medular⁹. Para ello, la angiografía puede ayudar a determinar el vaso de nutrición del hemangioma y con ello la viabilidad de practicar una embolización sin riesgo de comprometer la circulación medular.

La vertebroplastia puede prevenir el colapso del cuerpo vertebral, pero no destruye las formaciones vasculares; el hemangioma, entonces, puede seguir un proceso expansivo con la sintomatología neurológica subsiguiente y sus posibles complicaciones (embolia pulmonar, etc.)¹⁰⁻¹².

Fernández *et al.*¹³ evaluaron los efectos de la radioterapia (20-30 Gy) en un grupo de 7 pacientes con hemangiomas vertebrales sintomáticos seguidos una media de 19 meses y encontraron que el tratamiento fue efectivo y sin ninguna recaída en 6 de ellos, además de no presentar efectos tóxicos. Más recientemente, Heyd *et al.*¹⁴ describen 63 casos tratados exclusivamente con radioterapia (30,0 Gy) donde el 57% tuvieron una remisión completa de los síntomas, 32% una remisión parcial, y en un 11% no obtuvieron respuesta. Con ello concluyen igualmente que la radioterapia es muy útil en el manejo sintomático de estos pacientes, aunque, debido al tiempo que precisa para ser efectiva, en los casos con sintomatología neurológica (compresión medular) primero debe indicarse tratamiento quirúrgico y posteriormente radioterapia, con el fin de prevenir recidivas. Aunque la radioterapia ayuda a obliterar el hemangioma y produce mejoría de la

sintomatología dolorosa, se han descrito casos en los que puede producir complicaciones tales como necrosis medular o mielitis¹⁵.

Los mecanismos biológicos por los cuales la sintomatología álgica se ve disminuida son controvertidos; podría tratarse de un efecto antiinflamatorio, o de destrucción de los vasos anómalos por fenómenos de fibrosis vascular¹.

En otro trabajo, aún más reciente, los mismos autores presentaron la serie más extensa hasta la fecha de casos de hemangioma vertebral tratado con radioterapia (un total de 84 pacientes con 96 lesiones sintomáticas). Los autores concluyeron que la radioterapia es un método fácil, seguro y efectivo para aliviar el dolor asociado a estas lesiones, demostraron que una dosis total de al menos 34 Gy era la ideal para alcanzar la respuesta más satisfactoria. Entre los efectos secundarios de la misma describieron ulceraciones cutáneas y riesgo de carcinogénesis en un 2,4 %¹.

La embolización, alcoholización y vertebroplastia de los angiomas vertebrales múltiples es arriesgada, y la ausencia de compromiso neurológico descartaba la cirugía como primera posibilidad; por ello se optó por la radioterapia. El tratamiento implementado fue efectivo, consiguiendo disminuir la dosis analgésica (se logró retirar el tratamiento con opiáceos mayores y gabapentina) con la consiguiente reducción de los posibles efectos secundarios.

En conclusión, creemos que el caso descrito es relevante por la presentación clínica y radiológica (hemangiomatosis múltiple), retraso y confusión inicial en el diagnóstico (que usualmente se realiza con el examen radiológico), así como por su excelente respuesta al tratamiento radioterápico.

Aunque existen múltiples métodos para tratar los hemangiomas vertebrales, no existen guías sobre su manejo; existe dificultad para el diagnóstico en la fase asintomática de la enfermedad, y generalmente se plantea tratamiento cuando existen ya complicaciones como fractura o compresión secundaria. A pesar de ello, hay que recalcar la importancia de un diagnóstico preciso y un seguimiento oportuno para evitar secuelas severas y permanentes.

Bibliografía

- Heyd R, Seegenschmiedt MH, Rades D, Winkler C, Eich HT, Bruns F, et al. German Cooperative Group on Radiotherapy for Bening Diseases: Radiotherapy for Symptomatic Vertebral Hemangiomas: Results of a Multicenter Study and Literature Review. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 2009 Aug 20. [Epub ahead of print].
- Pastushyn AI, Slin'ko EI, Mirzoyeva. Vertebral hemangiomas: diagnosis, management, natural history and clinicalpathological correlates in 86 patients. *Surg Neurol* 1998;50:535-47.
- Korres DS, Karachalios T, Roidis N, Bargiotas K, Stamos K. Pain pattern in multiple hemangiomas involving non adjacent levels: report of two cases. *Eur Spine J* 2000;9:256-60.
- Alonso G, Reyes García R, Fernández García D, Muñoz Torres M. Hemangioma vertebral. *Rev Esp Enf Metab Óseas* 2008;17(3):49-50.
- Rudnick J, Stern M. Symptomatic thoracic vertebral hemangioma: A case report and literature review. *Arch Phys Med Rehabil* 2004;85:1544-7.
- Cross JJ, Antoun NM, Laing RJ, Xuereb J. Imaging of compressive vertebral haemangiomas. *Eur Radiol* 2000;10:997-1002.
- Acosta FL Jr, Sanai N, Chi JH, Dowd CF, Chin C, Tihan T, et al. Comprehensive management of symptomatic and aggressive vertebral hemangiomas. *Neurosurg Clin N Am* 2008;19:17-29.
- Bremnes RM, Hauge HN, Sagsveen R. Radiotherapy in the treatment of symptomatic vertebral hemangiomas: technical case report. *Neurosurgery* 1996;39:1054-8.
- Fox MW, Onofrio BM. The natural history and management of symptomatic and asymptomatic vertebral hemangiomas. *J Neurosurg* 1993;78:36-45.
- Deramond H, Damasson R, Galibert P. Percutaneous vertebroplasty with acrylic cement in the treatment of aggressive spinal angiomas. *Rachis* 1989;1:143-53.
- Galibert P, Deramond H. Percutaneous acrylic vertebroplasty as a treatment of vertebral angioma as well as painful and debilitating diseases. *Chirurgie* 1990;116:326-34.
- Ide C, Gangi A, Rimelin A, Beaujeux R, Maitrot D, Buchheit F. Vertebral hemangiomas with spinal cord compression: the place of preoperative percutaneous vertebroplasty with methyl methacrylate. *Neuroradiology* 1996;38:585-9.
- Fernández F, Moreno A, Quiles JC, Yacer C, Andreu FJ. Hemangiomas vertebrales. Historia natural, diagnóstico y tratamiento. Papel de la radioterapia. *Clin Transl Oncol* 2001;3:151-4.
- Heyd R, Strassmann G, Filipowicz I, Borowsky K, Martin T, Zamboglou N. Radiotherapy in vertebral hemangioma. *Rontgenpraxis* 2001;53:208-20.
- Guedea F, Majo J, Guardia E, Canals E, Craven-Bartle J. The role of radiation therapy in vertebral hemangiomas without neurologic signs. *Int Orthop* 1994;118:77-9.