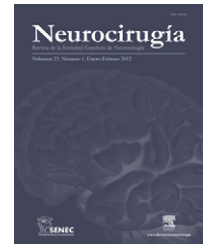


NEUROCIRUGÍA

www.elsevier.es/neurocirugia



Caso clínico

Ciatalgia secundaria a endometriosis extrapélvica del músculo piriforme. A propósito de un caso

Miguel Domínguez-Páez^{a,*}, Luis Segundo de Miguel-Pueyo^a,
Juan Manuel Medina-Imbroda^a, Laura González-García^a, Vanessa Moreno-Ramírez^b,
Alvaro Martín-Gallego^a, Mariano Socolovsky^c e Miguel Ángel Arráez-Sánchez^a

^a Servicio de Neurocirugía, Hospital Regional Universitario Carlos Haya, Málaga, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Regional Universitario Carlos Haya, Málaga, España

^c Servicio de Neurocirugía, Sección de Nervios Periféricos y Plexo, Hospital de Clínicas, Universidad de Buenos Aires, Buenos Aires, Argentina

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 4 de abril de 2012

Aceptado el 26 de abril de 2012

On-line el 22 de junio de 2012

Palabras clave:

Endometriosis extrapélvica

Endometriosis ciática

Endometriosis piriforme

Ciática episódica

R E S U M E N

Objetivos: Mostrar un caso de compresión sintomática del nervio ciático derecho a nivel de la escotadura ciática secundaria a una endometriosis en el músculo piriforme y realizar una revisión de los casos publicados en la literatura.

Material y métodos: Se presenta el caso de una paciente de 29 años con un cuadro de ciática derecha crónica de 2 años de evolución: el primer año episódica y coincidente con la menstruación, el segundo año constante y con un trastorno de la marcha por debilidad de la musculatura dependiente del músculo ciático. Como causa de la mononeuropatía (demostrada por estudio neurofisiológico) se objetivó en RM y PET una masa a nivel de la escotadura ciática con un aumento del metabolismo de las estructuras adyacentes. Con la finalidad de liberar el nervio y obtener muestra para diagnóstico histológico se decidió intervenir quirúrgicamente a la paciente.

Resultados: Se procedió a un abordaje transglúteo, neurólisis externa del nervio ciático y resección de un quiste de sangre evolucionada a nivel del músculo piriforme, informado como endometriosis en el examen histológico. Tras la cirugía la paciente refirió una resolución de la ciática.

Conclusiones: La compresión extrapélvica del nervio ciático secundaria a una endometriosis adyacente es un cuadro muy infrecuente. La presencia de signos denervativos neurofisiológicos y la ausencia de un diagnóstico histológico obligan a la exploración quirúrgica de la zona de compresión con la finalidad de liberar el nervio, reseca la causa de la compresión y obtener un diagnóstico definitivo, lo cual redundará en una mejora importante del cuadro clínico de la paciente.

© 2012 Sociedad Española de Neurocirugía. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: dr.m.dominguezpaez@gmail.com (M. Domínguez-Páez).

Sciatica secondary to extrapelvic endometriosis affecting the piriformis muscle. Case report

A B S T R A C T

Keywords:

Extrapelvic endometriosis
Sciatic endometriosis
Piriformis muscle endometriosis
Cyclic sciatica

Objective: We present a case report of symptomatic compression of the right sciatic nerve notch, secondary to piriformis muscle endometriosis, as well as a literature review.

Material and methods: We report the case of a 29-year-old woman with 2-year evolution of right chronic sciatica. During the first year, symptoms were episodic and associated with menstruation. During the second year, sciatica was constant and associated with gait disorder due to sciatic musculature weakness. Mononeuropathy was proved by a neurophysiological study, with MRI and PET studies revealing a mass in the sciatic notch and regional pathological increase in metabolic activity. Surgical treatment was performed in order to release the nerve and obtain a histological sample.

Results: The patient was treated by a transgluteal approach, with external neurolysis of the sciatic nerve and resection of an old-blood cyst at the level of the piriformis muscle. This was subsequently reported as endometriosis by histological examination. The sciatica was resolved after surgery.

Conclusions: Extrapelvic sciatic nerve compression by adjacent endometriosis is very infrequent. Muscle denervation and lack of a histological diagnosis led to surgical exploration of the compression area in order to release the nerve, resect the cause of compression and obtain a definitive diagnosis. The procedure improved all symptoms.

© 2012 Sociedad Española de Neurocirugía. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

La endometriosis es una enfermedad ginecológica benigna caracterizada por la presencia de mucosa endometrial ectópica, lo que origina una reacción inflamatoria local y un cuadro clínico característico en función de la zona donde se localiza. El asentamiento más frecuente es la cavidad pélvica y el cuadro clínico característico es el dolor pélvico y la infertilidad¹. La compresión del nervio ciático secundaria a una endometriosis a nivel de la escotadura ciática es una entidad muy infrecuente. Hasta la fecha solo se han descrito 13 casos en la literatura²⁻¹³; el primero de ellos fue publicado en 1955 por Denton y Sherrill². En este trabajo se aporta el resultado de una PET prequirúrgica, prueba complementaria no documentada en los casos anteriores, y además se realiza una revisión de la literatura.

Caso clínico

Paciente mujer de 29 años, sin antecedentes de interés, atendida en el Hospital Regional Universitario Carlos Haya de Málaga tras ser derivada de otro centro con un cuadro de ciática derecha de 2 años de evolución. El dolor comenzó de forma episódica, coincidiendo con la menstruación, se hizo constante en el último año de evolución y apareció un trastorno de la marcha secundario a debilidad en el miembro inferior derecho. A la exploración destacó una debilidad en la flexión dorsal del pie derecho (4/5 en la escala del Medical Research Council), una zona de hipoestesia en la región infraglútea medial derecha, dolor a la palpación profunda del glúteo derecho y una marcha inestable en equino. Los reflejos estaban conservados de forma simétrica y las maniobras de tracción radicular mostraron un Laségue positivo a 40°.

La paciente aportaba pruebas complementarias realizadas en otro centro, una RM lumbosacra en la que no se apreciaba lesión raquídea alguna, una RM pélvica en la que se observaba una lesión difusa a nivel de la escotadura ciática derecha, heterogénea en las secuencias T1-T2, sin captación de contraste, con aparente infiltración del músculo piriforme, obturador interno, gemelo superior e inferior, y un engrosamiento del nervio ciático (fig. 1A), informándose como posible sarcoma de partes blandas. Ante esta posibilidad también aportaba una PET en la que se apreciaba un aumento del metabolismo en todas las estructuras adyacentes a la escotadura ciática, volviendo a plantearse como diagnóstico diferencial un sarcoma de bajo grado de partes blandas (fig. 1C). Además, la paciente fue sometida a una biopsia de la lesión realizada con punción guiada por TC que no fue concluyente. También aportaba un estudio neurofisiológico en el que en el electroneurograma se objetivaba una amplitud y velocidad de conducción disminuidas del nervio ciático poplíteo externo e interno, y en el electromiograma (EMG) signos de denervación crónica en el músculo tibial anterior y peroneo largo derechos.

Ante la compresión objetiva del nervio ciático a nivel de la escotadura y la ausencia de diagnóstico histológico, se procedió a realizar un abordaje transglúteo a la zona de la escotadura ciática bajo monitorización neurofisiológica. Durante la cirugía se objetivó un nervio ciático atrapado por abundante fibrosis en su trayecto subglúteo, por lo que se procedió a una neurólisis externa 360° desde distal a proximal. Durante las maniobras de liberación se observó a nivel del músculo piriforme una lesión pseudoquistica bien delimitada de unos 2,5 cm con evidencia de depósitos de hemosiderina adyacentes, justo encima de la primera porción extrapélvica del nervio ciático (fig. 1B). Al incidir la lesión emergió un material líquido a presión con aspecto de sangre

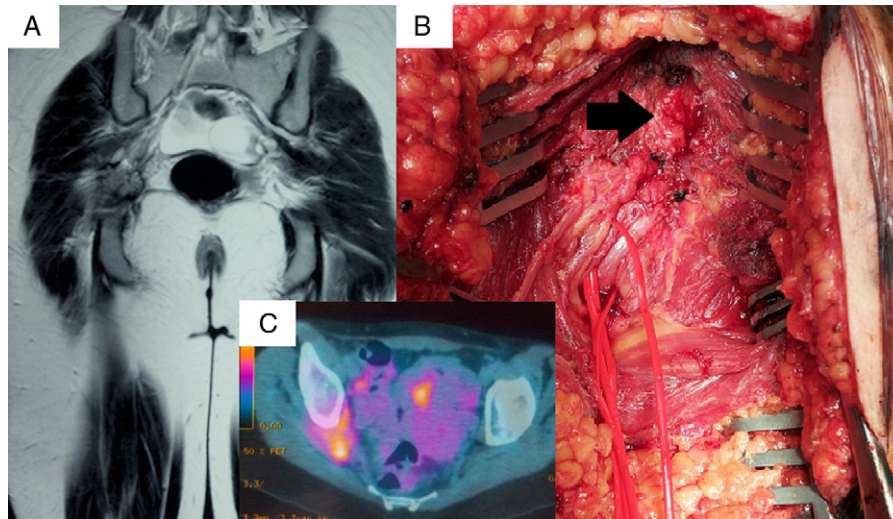


Figura 1 – A) Secuencia T2 de RM sacra y de miembro inferior. Se aprecia una lesión difusa de señal heterogénea a nivel de la escotadura ciática, en el inicio del trayecto extrapélvico del nervio ciático. B) PET, aumento metabólico de las estructuras adyacentes a la escotadura ciática. C) Exposición quirúrgica del nervio ciático a través de un abordaje transglúteo. Flecha: porción del músculo piriforme donde estaba localizado el foco de endometriosis.

evolucionada, obteniéndose una muestra que se mandó a citología. Posteriormente se procedió a la resección con márgenes libres de la pseudocápsula, mandándose a estudio anatomopatológico.

La evolución postoperatoria fue satisfactoria, cediendo la ciática y no apreciándose déficit motor añadido, pero sí disestesias transitorias en la región dorsal del pie. La deambulación fue posible a las 48 h, y a las 72 h recibió el alta hospitalaria. Al mes la paciente ya no refería debilidad muscular. El resultado citológico-histopatológico fue informado como de endometriosis (fig. 2A-B). En el seguimiento la paciente fue derivada al servicio de ginecología, donde se autotrató con anticonceptivos orales. Tras 6 meses desde el tratamiento quirúrgico el dolor ciático constante no ha vuelto a aparecer, pero sí ciáticas catameniales aunque de menor intensidad que las previas al tratamiento quirúrgico y médico, probablemente en relación a focos de endometriosis intrapélvicos no objetivables en la RM.

Discusión

Fisiopatología

La presencia de mucosa endometrial ectópica, entidad conocida como endometriosis, presenta una incidencia anual del 1,3/1.000 y una prevalencia en torno al 1-7% en mujeres de edad fértil^{1,14}. Existen 2 teorías que intentan explicar este fenómeno. La considerada menos acertada propone un fenómeno de metaplasia en el epitelio germinal a nivel de los ovarios y/o conductos de Müller, lo que no justifica la presencia de endometriosis extrapélvica¹⁵. La teoría de la menstruación retrógrada de Sampson¹⁶ es actualmente la más aceptada, ya que explica la localización extrapélvica, además de que justifica que el nervio ciático derecho sea el más afectado por interposición del colon sigmoide en el lado izquierdo¹⁷.

El desarrollo de una mononeuropatía ciática secundaria a una endometriosis a nivel de la escotadura ciática se asocia a fenómenos de inflamación y fibrosis local, donde intervienen el sangrado menstrual cíclico, la invasión por se del estroma endometrial, así como mediadores químicos y/o celulares donde destacan: factores de crecimiento neural, factores inflamatorios y mastocitos¹⁸⁻²⁰.

Clínica

Los síntomas y signos son secundarios a una compresión del nervio ciático a nivel proximal. Los descritos en orden descendente de frecuencia son: ciática catamenial, debilidad motora en la musculatura dependiente del nervio ciático (siendo lo más frecuente un pie caído), dolor a la palpación profunda a nivel de la escotadura ciática, y ciática constante²⁻¹³. En nuestro caso se presentaban todos los síntomas descritos, destacando que la ciática episódica catamenial evolucionó hasta hacerse constante. El desarrollo de un cuadro de dolor de distribución ciática durante la menstruación, en una mujer de edad fértil, sin patología raquídea discal en las pruebas complementarias, es sugestivo de una endometriosis en las raíces y/o trayecto proximal del nervio ciático.

Diagnóstico

Ante el cuadro clínico de una mononeuropatía ciática es necesario excluir causas extrínsecas e intrínsecas de compresión a lo largo del trayecto del nervio, siendo la RM lumbosacra y del miembro inferior afectado la prueba de imagen ideal. Ante un caso de endometriosis extrapélvica podemos encontrar hallazgos como colecciones hemáticas en diferentes fases evolutivas, tejido glandular endométrico (puede realzarse con contraste u observarse como una lesión heterogénea en secuencias T2 al encontrarse mezclado con productos hemáticos), fibrosis perilesional o evidencias indirectas de

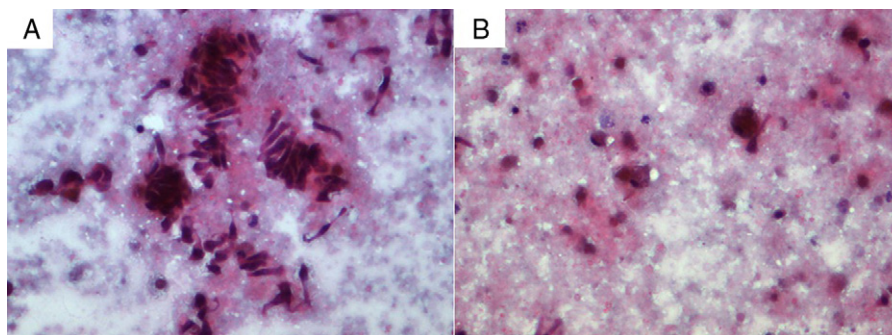


Figura 2 – A-B) Fotomicrografía de la extensión citológica realizada a partir del contenido de la lesión quística del músculo piriforme. Se aprecian abundantes células epiteliales y columnares que evidencian estructuras ciliadas en la superficie apical de algunas de ellas. El fondo es hemático, con presencia de abundantes macrófagos hemosiderínicos. El estudio histológico de dicha lesión mostró un tejido fibroso desprovisto de epitelio, con signos de hemorragia antigua. En base a los hallazgos citológicos e histológicos y en correlación con la clínica de la paciente, se realiza el diagnóstico de compatibilidad con endometriosis.

compresión ciática, como atrofia e infiltración grasa de los músculos denervados^{11,21,22}. En nuestro caso, en la RM pélvica y de miembro inferior realizada se apreciaba una masa heterogénea adyacente a la escotadura ciática, sin infiltrar el hueso y con cambios de señal en la musculatura adyacente, esto último probablemente en relación a la reacción inflamatoria local y a la denervación por compresión nerviosa. La PET mostró un aumento del metabolismo de todas las estructuras adyacentes, planteando como diagnóstico de presunción un sarcoma de bajo grado, por lo que no resultó útil a la hora de orientar el diagnóstico radiológico. Para realizar un diagnóstico definitivo de endometriosis es necesaria una muestra para su análisis histológico y/o citológico. En nuestro caso, en el contenido del quiste se hallaron células columnares ciliares y sangre en diferentes estadios evolutivos, diagnóstico compatible con endometriosis.

Manejo terapéutico

Ante un cuadro de ciática catamenial con la sospecha clínica de endometriosis, sin déficit neurológico y sin signos de lesión nerviosa en el EMG, el primer escalón terapéutico es médico: antiinflamatorios no esteroideos, anticonceptivos orales y/o agonistas GnRH²³. En caso de que el cuadro no responda al tratamiento médico tras 6 meses o si existe debilidad muscular y/o denervación en el EMG, es necesario plantear un tratamiento quirúrgico: neurectomía intra o extrapélvica en función de donde se sospeche que asienta la endometriosis⁴. En nuestro caso, la presencia de una lesión a nivel extrapélvico en la escotadura ciática, la debilidad muscular, la denervación asociada en el EMG y la ausencia de un diagnóstico histológico determinó que se decidiera plantear el tratamiento quirúrgico a la paciente a través de un abordaje transglúteo^{24,25}. Los trabajos reportados a través de la fecha que describen el resultado clínico tras la cirugía³⁻¹³ muestran que reducen el dolor ciático en el 100% de los casos, mientras que el déficit neurológico solo mejora en un 33%. Tras la cirugía es recomendable continuar con tratamiento médico durante 6 meses para disminuir el riesgo de recurrencia⁴.

Conclusión

La compresión extrapélvica del nervio ciático secundaria a una endometriosis adyacente es un cuadro muy infrecuente. Dicha entidad debe sospecharse ante una ciática catamenial en una mujer en edad fértil con RM lumbar sin patología discal-foraminal que justifique la clínica. La presencia de signos de nervios neurofisiológicos y la ausencia de un diagnóstico histológico obligan a la exploración quirúrgica de la zona de compresión con la finalidad de liberar el nervio, reseca la causa de la compresión y obtener un diagnóstico definitivo.

BIBLIOGRAFÍA

- Hompes PG, Mijatovic V. Endometriosis: the way forward. *Gynecol Endocrinol*. 2007;23:5-12.
- Denton RO, Sherrill JD. Sciatic syndrome due to endometriosis of sciatic nerve. *South Med J*. 1955;48:1027-31.
- Baker GS, Parsons WR, Welch JS. Endometriosis within the sheath of the sciatic nerve. Report of two patients with progressive paralysis. *J Neurosurg*. 1966;25:652-5.
- Floyd JR, Keeler ER, Euscher ED, McCutcheon IE. Cyclic sciatica from extrapelvic endometriosis affecting the sciatic nerve. *J Neurosurg Spine*. 2011;14:281-9.
- Forrest JS, Brooks DL. Cyclic sciatica of endometriosis. *JAMA*. 1972;222:1177-8.
- Granberry WM, Henderson ED, Miller RH, Faber JE, Dockerty MB. Endometriosis of the sciatic nerve without evidence of pelvic endometriosis. Report of a case. *Minn Med*. 1959;42:1794-7.
- Hettler A, Böhm J, Pretzsch M, von Salis-Soglio G. Extragenital endometriosis leading to piriformis syndrome. *Nervenarzt*. 2006;77:474-7.
- Hibbard J, Schreiber JR. Footdrop due to sciatic nerve endometriosis. *Am J Obstet Gynecol*. 1984;149:800-1.
- Mannan K, Altaf F, Maniar S, Tirabosco R, Sinisi M, Carlsedt T. Cyclical sciatica: endometriosis of the sciatic nerve. *J Bone Joint Surg Br*. 2008;90:98-101.

10. Papapietro N, Gulino G, Zobel BB, Di Martino A, Denaro V. Cyclic sciatica related to an extrapelvic endometriosis of the sciatic nerve: new concepts in surgical therapy. *J Spinal Disord Tech.* 2002;15:436-9.
11. Pham M, Sommer C, Wessig C, Monoranu CM, Pérez J, Stoll G, et al. Magnetic resonance neurography. Diagnosis of extrapelvic sciatic endometriosis. *Fertil Steril.* 2010;94:351, e11-4.
12. Salazar-Gruesso E, Roos R. Sciatic endometriosis: a treatable sensorimotor mononeuropathy. *Neurology.* 1986;36:1360-3.
13. Zager EL, Pfeifer SM, Brown MJ, Torosian MH, Hackney DB. Catamenial mononeuropathy and radiculopathy: a treatable neuropathic disorder. *J Neurosurg.* 1998;88:827-30.
14. Cramer DW, Missmer SA. The epidemiology of endometriosis. *Ann N Y Acad Sci.* 2002;955:11-22.
15. Vinatier D, Orazi G, Cosson M, Dufour P. Theories of endometriosis. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2001;96:21-34.
16. Sampson J. Peritoneal endometriosis due to the menstrual dissemination of endometrial tissue into the peritoneal cavity. *Am J Obstet Gynecol.* 1927;14:422-69.
17. Vercellini P, Chapron C, Fedele L, Frontino G, Zaina B, Crosignani PG. Evidence for asymmetric distribution of sciatic nerve endometriosis. *Obstet Gynecol.* 2003;102:383-7.
18. Anaf V, Chapron C, El Nakadi I, De Moor V, Simonart T, Noël JC. Pain, mast cells, and nerves in peritoneal, ovarian, and deep infiltrating endometriosis. *Fertil Steril.* 2006;86:1336-43.
19. Sugamata M, Ihara T, Uchiide I. Increase of activated mast cells in human endometriosis. *Am J Reprod Immunol.* 2005;53:120-5.
20. Tokushige N, Markham R, Russell P, Fraser IS. Nerve fibres in peritoneal endometriosis. *Hum Reprod.* 2006;21:3001-7.
21. Kinkel K, Frei KA, Balleyguier C, Chapron C. Diagnosis of endometriosis with imaging: a review. *Eur Radiol.* 2006;16:285-98.
22. Reddy S, Porter D, Patton JT, Al-Nafussi A, Beggs I. Endometriosis of the superior gluteal nerve. *Skeletal Radiol.* 2007;36:879-83.
23. Kennedy S, Bergqvist A, Chapron C, D'Hooghe T, Dunselman G, Greb R, et al. ESHRE guideline for the diagnosis and treatment of endometriosis. *Hum Reprod.* 2005;20:2698-704.
24. Socolovsky M, Garategui L, Campero A, Conesa H, Basso A. Exposure of the sciatic nerve in the gluteal region without sectioning the gluteus maximus: an anatomical and microsurgical study. *Acta Neurochir Suppl.* 2011;108:233-40.
25. Socolovsky M, Masi GD. Exposure of the sciatic nerve in the gluteal region without sectioning the gluteus maximus: analysis of a serie of 18 cases. *Surg Neurol Int.* 2012;3:15.