



Efectivitat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I

CT16/2009

Agost 2008

L'Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques és una empresa pública, sense ànim de lucre, del Departament de Salut i adscrita al CatSalut, que va ser creada al maig de 1994. Té com a objectius promoure que la introducció, l'adopció, la difusió i la utilització de tecnologies mèdiques es faci d'acord amb criteris d'eficàcia, seguretat, efectivitat i eficiència demostrades, i també promoure la recerca orientada a les necessitats de salut de la població i a les de coneixement del sistema sanitari. L'Agència és centre col·laborador de l'Organització Mundial de la Salut en avaluació de tecnologia mèdica, membre fundador de la International Network of Agencies for Health Technology Assessment (INAHTA), membre corporatiu de la Health Technology Assessment International (HTAi), membre de la Guidelines International Network (G-I-N), membre del CIBER d'Epidemiologia i Salut Pública (CIBERESP) i grup de Recerca en Avaluació de Serveis i Resultats de Salut (RAR) reconegut per la Generalitat de Catalunya.

L'autor declara no tenir cap conflicte d'interès en relació amb aquest informe.

Es recomana que aquest document sigui citat de la manera següent: Allepuz A. Efectivitat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I. Barcelona: Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques. Servei Català de la Salut. Departament de Salut. Generalitat de Catalunya; 2009.

Les persones interessades en aquest document poden adreçar-se a:

Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques. Roc Boronat, 81-95 (segona planta). 08005 Barcelona
Tel.: 93 551 3888 | Fax: 93 551 7510 | direccio@aatrm.catsalut.cat | www.aatrm.net

Edita: Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques. 1a edició, setembre 2009, Barcelona
Correcció: Isabel Parada (AATRM)
Disseny: Isabel Parada (AATRM)
Dipòsit legal: B-38682-2009

© Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques

L'Agència té la propietat intel·lectual d'aquest document, el qual pot ser reproduït, distribuït i comunicat públicament, totalment o parcialment, per qualsevol mitjà, sempre que no se'n faci un ús comercial i se citi explícitament la seva autoria i procedència.

Efectivitat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I

Alejandro Allepuz

AGRAÏMENTS

L'autor vol agrair la informació proporcionada pel Doctor Juan F. Martínez-Lage Sánchez, cap del Servei Regional de Neurocirurgia de l'Hospital Universitari Virgen de la Arrixaca de Múrcia, i pel Doctor Ramón Navarro Balbuena, adjunt del Servei de Neurocirurgia de l'Hospital del Mar.

ÍNDEX

| | |
|-------------------|----|
| Resum..... | 6 |
| Introducció..... | 8 |
| Objectius..... | 10 |
| Metodologia..... | 10 |
| Resultats..... | 11 |
| Discussió..... | 13 |
| Conclusions..... | 15 |
| Bibliografia..... | 16 |

RESUM

Objectiu

Revisar l'evidència científica disponible sobre l'eficàcia/efectivitat i seguretat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I (MCI).

Tipus d'intervenció

La secció del *filum terminale* es basa en la teoria de la tracció caudal que considera que la tensió que produeix a nivell medul·lar és la responsable de l'herniació de les amígdales cerebel·loses.

Metodologia

Es va revisar l'evidència científica mitjançant una cerca a diferents bases de dades bibliogràfiques i directoris de guies de pràctica clínica fins a l'agost de 2008. L'estratègia de cerca va incloure només el terme Arnold Chiari. En el cas de PubMed la cerca es va restringir als treballs sobre la cirurgia de l'Arnold Chiari. No va haver-hi limitació quant a tipus d'estudi. D'altra banda, es va contactar amb especialistes en neurocirurgia per tal d'obtenir informació sobre treballs publicats o altres tipus de documents.

Resultats

A través de PubMed es van recuperar 610 articles dels quals se'n van seleccionar 2 que havien estat publicats pel mateix autor. A la resta de fonts d'informació consultades no es va recuperar cap altre treball. Els 2 treballs eren sèries de casos publicades el 1997 i el 2005. Aquest informe es va centrar en els resultats dels 20 pacients del treball de 2005 atès que va incloure els 5 pacients del treball de 1997. Dels 20 pacients, operats entre 1993 i 2003, 5 havien estat diagnosticats de siringomièlia, 3 de siringomièlia i escoliosi, 8 d'escoliosi, 2 d'MCI i 2 de siringomièlia, escoliosi i MCI alhora. Els pacients no van ser consecutius i els criteris d'inclusió no van quedar descrits. Es van mesurar els resultats de forma qualitativa després de la cirurgia i al setembre-octubre de 2004, tot i que el procés de mesura no va ser explicat. Va haver-hi 5 pèrdues de seguiment de les quals només en 1 cas es disposa d'informació sobre el motiu. Els pacients van experimentar en general millores significatives tant després de la cirurgia com al seguiment a llarg termini. Es va tractar de contactar amb quatre professionals i es van rebre dues respostes. La informació proporcionada per la revisió de la literatura i pels experts consultats va coincidir en el fet que ara per ara el tractament acceptat per a l'MCI és la descompressió craniocervical, i que la teoria de la tracció caudal, que donaria suport a la secció del *filum terminale* com a tractament quirúrgic, no està actualment acceptada. D'altra banda, els dos professionals van estar d'acord que seria necessari portar a terme un estudi de disseny adequat per avaluar de forma rigorosa els resultats de la secció del *filum terminale*.

Conclusions

La tècnica quirúrgica més acceptada per al tractament de l'MCI és la descompressió de la unió craniocervical. La teoria de la tracció caudal, que donaria suport a la secció del *filum*

terminale, no és actualment considerada com a vàlida. Els resultats observats de l'únic estudi que avalua la secció del *filum terminale* podrien indicar l'existència de factors que intervenen en la seva patogènia i que no s'estan tenint en compte. Tot i això, la seva baixa qualitat fa necessari el disseny d'estudis que permetin avaluar de forma rigorosa els resultats d'aquesta tècnica quirúrgica.

INTRODUCCIÓ

Justificació

El mes de juliol de 2008 l'Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques (AATRM) va rebre la petició, per part de la cap de la Divisió d'Atenció al Ciutadà del Servei Català de la Salut-CatSalut, d'elaborar un informe sobre l'efectivitat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I (MCI). L'origen d'aquesta petició va ser la consulta realitzada per un ciutadà adreçada a la consellera de Salut.

Antecedents

Hi ha quatre formes tradicionals de malformacions de Chiari que suposen diferents graus d'afectació del romboencèfal. Tres d'aquestes formes (tipus I-III) presenten herniacions d'aquesta estructura fora de la fosa cranial posterior. Actualment no hi ha consens ni en la patogènesi ni en el tractament d'aquestes malformacions. Tot i que els diferents tipus de malformacions de Chiari establerts permeten classificar la majoria de pacients, és probable que les diferents categories de Chiari no representin un continu del mateix procés i no defineixin de manera adequada totes les formes d'herniació de les estructures de la fosa posterior¹. De fet, recentment han estat descrits els tipus 0 i 1,5 de malformació de Chiari^{2,3}.

L'MCI es defineix com una herniació de les amígdales cerebel·loses en el canal medul·lar a través del *foramen magnum* de com a mínim 3 mm⁴. L'herniació del tronc de l'encèfal és poc comuna i les troballes més freqüents són siringomièlia cervical i en ocasions hidrocefàlia. Es tracta d'una malformació congènita, tot i que hi ha casos descrits d'MCI adquirida i en moltes ocasions a la literatura s'han citat associacions amb d'altres patologies com ara la síndrome de Klippel-Feil, la deficiència d'hormona del creixement o la neurofibromatosi, entre d'altres¹.

La patogènesi de l'MCI és encara controvertida i segons Tubbs i col·laboradors les diferents teories es podrien agrupar en: alteracions en el desenvolupament del romboencèfal, la teoria de tracció caudal, la teoria hidrodinàmica de Gardner, la teoria sobre el volum reduït de la fosa posterior i creixement del romboencèfal, i la teoria sobre la manca de distensió embriològica ventricular¹. Quant a la teoria de la tracció caudal de la medul·la espinal, aquest mateix autor, a partir de l'experimentació en cadàvers, va concloure que no és una teoria vàlida per explicar l'etiologia del descens de les amígdales cerebel·loses, i va recomanar l'experimentació in vivo per tal de confirmar aquests resultats⁵. Tot i això, s'ha de tenir en compte que en casos d'espina bífida oculta la secció del *filum terminale* és una pràctica habitual⁶. Tubbs i col·laboradors van analitzar l'associació entre l'existència de lipomielomeningocele, alteració que pot aparèixer en l'espina bífida oculta, i l'MCI, i van observar que el nombre de casos amb MCI (7 entre els 54 estudiats) era superior a l'esperable i que en la majoria no hi havia una reducció del volum de la fosa cranial posterior⁷. Aquesta troballa podria donar suport a la teoria caudal rebutjada pel mateix autor.

L'MCI sembla afectar més dones que homes (3:1) i l'edat mitjana d'inici dels símptomes està al voltant dels 25 anys. Els problemes associats més freqüents són la siringomièlia (65%), l'escoliosi (42%) i la invaginació basilar (12%)⁴. Els símptomes de presentació estan

relacionats amb la localització de la malformació. Les manifestacions poden estar relacionades amb el tronc cerebral (parells cranials), la medul·la espinal (sensitives i motores) i el cerebel (nistagmes, atàxia i altres), amb una freqüència del 22%, 65% i 11%, respectivament⁸. La forma de presentació pot variar segons l'edat. En els pacients més joves l'apnea i els problemes amb la deglució poden ser més freqüents tot i que la resta de símptomes són semblants als dels pacients més grans. El símptoma més freqüent és el mal de cap i el dolor (60-70%) en l'àrea occipital i en la part alta de la columna cervical, que es pot exacerbar amb la maniobra de Valsalva i afectar també els múscles i l'esquena^{1,4}.

Abans de la introducció de la ressonància magnètica (RM) el diagnòstic es feia a partir de la radiografia. La introducció de l'RM va fer que s'incrementés el nombre de diagnòstics i que fos necessari avaluar els símptomes del pacient per establir un diagnòstic i tractament adequats⁹. Després de la revisió d'una sèrie d'RM realitzades a 22.591 pacients d'un mateix hospital, es va observar que en 175 (0,8%) existia una herniació de més de 5 mm de les amígdales cerebel·loses i en 25 d'aquests (14,3%) no hi havia símptomes¹⁰. D'altra banda, el punt de tall per establir l'herniació de les amígdales cerebel·loses pot variar segons l'edat. En una revisió de 221 pacients sense símptomes associats amb la localització de les amígdales cerebel·loses amb edats compreses entre els 5 mesos i els 89 anys, es va observar que les amígdales ascendien amb l'edat. El punt de tall per considerar l'existència d'una herniació de les amígdales es va establir a partir de dues desviacions estàndards dins de cada grup d'edat passant dels 6 mm en els menors de 10 anys, als 5 mm en els de 10-40, als 4 mm en els de 40-90 i als 3 mm en els més grans de 90, tot i que actualment els 3 mm és el punt de tall més acceptat^{1,11}. L'RM dinàmica, basant-se en les alteracions en el flux del líquid cefaloraquidi observat per diferents autors, s'ha proposat com una nova tècnica de diagnòstic tenint en compte també la mida cranial posterior¹².

El tractament acceptat dels pacients diagnosticats d'MCI és la descompressió del *foramen magnum* amb craniotomia suboccipital i laminectomia de l'atles amb o sense obertura de la duramàter i empelts de duramàter¹³. El tractament mèdic no sembla una alternativa a la descompressió de les estructures nervioses¹. Tot i que existeix acord que el tractament quirúrgic és l'adequat, no passa el mateix amb la tècnica quirúrgica. En una enquesta realitzada el 1998 a 234 membres de l'American Association of Neurological Surgeons, els 77 professionals que la van respondre van estar d'acord en la descompressió de la unió craniocervical, tot i que va haver-hi variabilitat quant a la necessitat d'empelts durals, dissecció intradural i manipulació de les amígdales cerebel·loses. En canvi, sí que va existir acord a desaconsellar la cirurgia en pacients asimptomàtics sense siringomièlia. La majoria (83%) van aconsellar la cirurgia només en el cas que el pacient desenvolupés símptomes¹⁴. En una altra enquesta, la majoria de neurocirurgians van recomanar una descompressió de la unió craniocervical en el cas de presència de siringomièlia. La dilatació anormal d'aquestes cavitats intramedul·lars pot produir una degeneració irreversible dels feixos nerviosos ascendents i descendents de la medul·la. Tot i aquesta variabilitat, segons Tubbs i col·laboradors els resultats són semblants entre les diferents tècniques de tractament¹. Una altra opció quirúrgica és la secció del *filum terminale* que ha estat proposada com una tècnica vàlida per Royo-Salvador i col·laboradors basant-se en la teoria de la tracció caudal^{15,16}.

OBJECTIUS

L'objectiu d'aquesta consulta tècnica ha estat revisar l'evidència científica disponible sobre l'eficàcia/efectivitat i seguretat de la secció del *filum terminale* per al tractament de la malformació de Chiari tipus I.

METODOLOGIA

Es va revisar l'evidència científica mitjançant una cerca a diverses bases de dades bibliogràfiques (Medline/Pubmed, The Cochrane Library Plus, Database of Abstracts of Reviews of Effectiveness, NHS Economic Evaluation Database, Health Technology Assessment Database) i directoris de guies de pràctica clínica (National Guidelance Clearinghouse, New Zealand Guidelines Group, Scottish Intercollegiate Guidelines Network, Directori Fistera, National Institute for Clinical Excellence). L'estratègia de cerca a totes les bases de dades i directoris de guies va ser la mateixa fent servir com a paraula clau Arnold Chiari. En el cas del PubMed, aquesta paraula clau es va limitar als articles publicats sobre cirurgia. No es va incloure cap tipus de restricció a la cerca quant a tipus d'estudi, tot i que es van revisar només els treballs amb resum disponible. El procés de selecció va consistir en la lectura del títol i, en aquells casos en què el títol suggeria que el treball podia estar relacionat amb l'objectiu d'aquesta consulta, es va revisar també el resum per tal de decidir si s'hi havia d'incloure. Totes les cerques es van dur a terme el 4 d'agost de 2008. La qualitat dels estudis va ser avaluada a partir dels criteris proposats pels diferents tipus de dissenys d'estudis pel Grup de Treball sobre Guies de Pràctica Clínica¹⁷.

D'altra banda, a més de la revisió de la literatura, també es va contactar amb especialistes en neurocirurgia espanyols per tal d'obtenir informació sobre treballs publicats o altres tipus de documents que proporcionessin informació sobre l'eficàcia/efectivitat i seguretat d'aquest tipus de tècnica quirúrgica. La selecció d'aquests professionals es va fer a partir de la informació disponible a la pàgina d'Internet de l'Associació de Familiars i Afectats de Chiari i Patologies Associades (Afacpa, <http://www.afacpa.org/>) sobre els ponents en conferències sobre MCI i publicacions sobre MCI.

RESULTATS

La cerca a les bases de dades bibliogràfiques va donar com a resultat 610 articles, dels quals se'n van seleccionar 2 en què s'analitzaven els resultats de la secció del *filum terminale* per al tractament de l'MCI i que van ser sèries de casos publicades pel mateix autor. El primer treball va ser publicat l'any 1997 i va incloure 5 casos, i el segon es va publicar l'any 2005 i va incloure els mateixos 5 casos i 15 més fent un total de 20 pacients^{15,16}. La revisió dels directoris de guies de pràctica clínica no va proporcionar cap informació sobre l'MCI. Atès que el treball publicat l'any 2005 va incloure també els pacients de l'estudi de 1997, es va decidir revisar només els resultats del treball més recent.

El treball publicat el 2005 per Royo-Salvador i col·laboradors va incloure 20 pacients, 8 homes i 12 dones, amb edats entre els 12 i els 70 anys¹⁶. Dels 20 pacients, 5 havien estat diagnosticats de siringomièlia, 3 de siringomièlia i escoliosi, 8 d'escoliosi, 2 d'MCI i 2 de siringomièlia, escoliosi i MCI alhora. L'objectiu del treball va ser presentar els resultats de la secció del *filum terminale* en aquests pacients operats entre l'abril de 1993 i el juliol de 2003. Els pacients inclosos a l'estudi no van ser consecutius i els criteris d'inclusió i d'exclusió no van quedar descrits. Tampoc no es proporcionà informació sobre si es tractava d'una mostra o de tots els pacients operats durant el període d'estudi. La simptomatologia i l'exploració física dels pacients abans de la cirurgia van quedar ben descrites. La tècnica quirúrgica va ser en tots els casos la secció del *filum terminale*, tot i que en els pacients operats fins a 1999 per a la secció del *filum terminale* es va obrir el sac dural. En la resta de pacients la cirurgia es va dur a terme sense obrir el sac dural.

Els resultats que es presenten a l'estudi corresponen a la simptomatologia posterior a la intervenció i a la situació de tots els pacients entre el setembre i l'octubre de 2004. Dels 20 pacients inclosos, es disposa d'informació sobre els resultats de 15 (vegeu la Taula). Sobre els 5 pacients perduts en el seguiment, només en 1 cas es disposa d'informació sobre el motiu de la pèrdua, que va ser èxitus per un carcinoma de laringe. La mesura dels resultats després de la cirurgia es va fer de forma qualitativa a partir de la millora dels símptomes. En el cas dels resultats a llarg termini (setembre - octubre de 2004) es van fer servir tres tipus de mesures: el percentatge de millora i dues preguntes sobre si el pacient acceptaria tornar a ser operat d'acord amb els resultats obtinguts i si considerava que la intervenció havia estat "molt útil", "útil", "inútil" o "perjudicial". En el cas de la valoració del percentatge de millora, no s'explica quin va ser el procés de mesura. D'acord amb els criteris per a l'avaluació de la qualitat de l'estudi, el treball es va considerar de baixa qualitat.

Quant als resultats de l'estudi, en tots els casos va haver-hi una millora significativa de la simptomatologia o una desaparició total dels símptomes. Al setembre-octubre de 2004, dels 15 pacients avaluats, el percentatge de millora global va variar entre el 10 i el 100%. Només 1 pacient va contestar que no acceptaria tornar a ser operat i un altre va considerar la seva intervenció com a inútil. La resta la van considerar útil o molt útil. L'única complicació posterior a la cirurgia es va donar en un cas i va consistir en una fístula dural que es va resoldre de forma espontània. En el cas concret dels pacients amb diagnòstic d'MCI (2 diagnosticats només d'MCI i 2 de siringomièlia, escoliosi i MCI), va haver-hi una millora

significativa de la simptomatologia després de la cirurgia. Al setembre-octubre de 2004, els 3 pacients dels quals es disposava d'informació, havien experimentat una millora que va variar entre el 40 i el 100% i van considerar la cirurgia com a útil o molt útil. En cap cas no va haver-hi complicacions (vegeu la Taula).

La consulta als professionals no va proporcionar nova informació sobre altres treballs en què s'hagués avaluat la secció del *filum terminale* per al tractament de l'MCI. Dels quatre professionals a qui es va consultar, se'n va rebre resposta de dos. Ambdós van estar d'acord que la teoria de la tracció caudal en l'origen de l'MCI, sobre la qual estava basada la tècnica quirúrgica, no estava actualment acceptada i que la tècnica quirúrgica més adequada és la descompressió de la unió craniocervical. Tot i això, els dos professionals van estar també d'acord que els resultats obtinguts després de l'aplicació d'aquesta tècnica fan necessària la seva avaluació de forma rigorosa per tal d'establir la seva efectivitat i seguretat.

Taula. Resultats de la secció del *filum terminale* segons el tipus de diagnòstic

| Diagnòstic | Nombre pacients | Resultat postquirúrgic | Situació dels pacients entre el setembre i l'octubre de 2004 | | | | |
|---|-----------------|---|--|-------------------------|------------------------|----------------|--|
| | | | Seguiment ^a | | Resultat ^b | | |
| | | | Pèrdues | Anys des de la cirurgia | % millora | P1 | P2 |
| Siringomièlia | 5 | En tots els casos desaparició dels símptomes | 1 | 1, 3, 7, 10 | 40, 90, 95, 100 | Sí: 4 No: 0 | Molt útil: 3 Útil: 1 Inútil: 0 Perjudicial: 0 |
| Siringomièlia i escoliosi | 3 | En tots els casos desaparició dels símptomes | 1 | 1, 2 | 30, 40 | Sí: 2 No: 0 | Molt útil: 0 Útil: 2 Inútil: 0 Perjudicial: 0 |
| Escoliosi | 8 | En 6 casos desaparició dels símptomes i en 2 millora l'escoliosi en 8 ^o i 6 ^o | 2 | 2, 4, 5, 6, 6, 6 | 10, 20, 30, 60, 80, 90 | Sí: 5 No: 1 | Molt útil: 3 Útil: 2 Inútil: 1 Perjudicial: 0 |
| Chiari tipus I | 2 | Millora significativa i desaparició dels símptomes | 0 | 5, 10 | 50, 100 | Sí: 2 No: 0 | Molt útil: 1 Útil: 1 Inútil: 0 Perjudicial: 0 |
| Siringomièlia, Chiari tipus I i escoliosi | 2 | Millora significativa dels símptomes | 1 | 3 | 40 | Sí: 1 No: 0 | Molt útil: 0 Útil: 1 Inútil: 0 Perjudicial: 0 |

^a En un cas el motiu de la pèrdua de seguiment va ser èxitus per carcinoma de laringe. En la resta de casos el motiu és desconegut. Els valors dels anys de seguiment corresponen als anys de seguiment per a cada pacient avaluat al setembre-octubre de 2004.

^b Els resultats es van mesurar a partir de tres variables: percentatge de millora (% millora), si el pacient acceptaria tornar a ser operat d'acord amb els resultats (P1), i com considerava que havia estat la seva intervenció quirúrgica mesurada en una escala des de molt útil a perjudicial (P2). En el cas del percentatge de millora es presenten els valors per a cadascun dels pacients avaluats.

DISCUSSIÓ

La secció del *filum terminale* es basa en la teoria que l'MCI té el seu origen en la tracció que provoca sobre la medul·la espinal la tensió del *filum terminale* i que origina una herniació de les amígdales cerebel·loides. Segons Royo-Salvador i col·laboradors, en tots els casos que van operar, després de la secció del *filum terminale*, es va observar un ascens de la medul·la espinal produint-se una separació entre 1 i 3 cm entre els dos extrems de la part seccionada¹⁶. Aquesta observació entra en contradicció amb les observacions de Tubbs i col·laboradors, qui van rebutjar aquesta teoria després de comprovar que en cadàvers no es produïa aquest fenomen de separació dels dos extrems després de la secció del *filum terminale*, tot i que el mateix autor reconeix que s'haurien de realitzar estudis in vivo per tal de confirmar aquests resultats i que va publicar un treball en què s'observava una associació entre l'existència de lipomielomeningocele i MCI¹⁷. D'altra banda, els treballs publicats de revisió sobre quina és la pràctica habitual per al tractament dels pacients diagnosticats d'MCI, mostren que en tots els casos la tècnica quirúrgica acceptada és la descompressió de la unió craniocervical (aspecte en el qual coincideixen els professionals consultats), tot i que existeix variabilitat quant al tipus de tècnica i es recomana la realització d'assajos clínics comparatius per determinar quins haurien de ser els criteris per establir el tractament més adequat^{1,14}.

Els resultats obtinguts després de la intervenció en els 4 pacients operats per Royo-Salvador i col·laboradors semblen indicar que la secció del *filum terminale* és un tractament efectiu i segur (només va haver-hi una complicació que es va resoldre de forma espontània, però que no va afectar els pacients operats d'MCI). Tot i això el treball presenta importants limitacions que fan que els resultats s'hagin d'interpretar amb cautela. Els pacients inclosos a l'estudi no són consecutius i tampoc no s'expliquen els criteris d'inclusió i d'exclusió i, per tant, no es pot descartar un biaix de selecció en la població d'estudi. D'altra banda, el mètode de mesura dels resultats no sembla el més adequat. No s'ha fet servir cap tipus d'escala que permeti valorar què entenen els autors per una millora significativa dels símptomes. A més, tampoc no queda clar com s'ha realitzat la mesura dels resultats a llarg termini. A banda de les dues preguntes que es fan sobre si es tornarien a operar i la utilitat de la intervenció, les quals es podrien considerar com una mesura de la satisfacció del pacient, no s'explica com s'ha recollit la variable de resultat del percentatge de millora. En aquest sentit, no es pot descartar l'existència d'un biaix d'informació que, com en el cas del procés de selecció dels pacients, hagués pogut afectar els resultats.

El procés d'innovació en cirurgia és diferent al dels fàrmacs, els quals han de demostrar la seva eficàcia i seguretat abans de poder ser aprovats per les agències reguladores. Aquesta manca de normativa fa difícil establir quan un procediment quirúrgic es pot considerar una innovació i quan el risc que s'ha d'assumir és acceptable, aspectes que són decidits pel mateix cirurgià¹⁸. La innovació terapèutica sorgeix com un procediment intermedi entre la tècnica que està subjecta a experimentació i la tècnica que es considera la pràctica establerta, i està adreçada al benefici del pacient individual en el qual les alternatives existents no són possibles o són d'escàs benefici, alhora, però, pretén establir una nova o millor forma d'abordar el procés que pot ser generalitzable a altres pacients semblants. En

cirurgia la innovació sorgeix primer en el camp dels experts, després la tècnica es prova en algun cas i, si els resultats es consideren adequats, la tècnica és provada en més casos¹⁹. La secció del *filum terminale* per al tractament de l'MCI constitueix una innovació en aquest àmbit, atès que no es tracta de la pràctica habitual i existeixen treballs que qüestionen la seva hipòtesi de treball. Tot i això, els resultats obtinguts, tenint en compte les seves limitacions, poden estar reflectint o bé que les teories actualment acceptades no són del tot correctes o bé que hi ha determinats factors en aquestes teories que no es contemplen i que podrien explicar aquests resultats.

Els assajos clínics comparatius i aleatoritzats constitueixen el millor disseny per establir l'eficàcia d'una intervenció. En el cas de les tècniques quirúrgiques, hi ha aspectes que podrien resultar difícils d'aplicar com ara l'assignació aleatòria (aspectes relacionats amb el pacient o amb la capacitat del mateix cirurgià de realitzar dues tècniques diferents poden dificultar el procés d'aleatorització) o l'avaluació amb cegament dels resultats (ateses les característiques de la mateixa tècnica quirúrgica que fan difícil el cegament per part de l'avaluador o del mateix pacient). En aquest sentit també hi ha d'altres dissenys, com els estudis avaluatius quasiexperimentals, que podrien ser una alternativa plausible per a aquestes situacions. Les sèries de casos són els dissenys que en general estan considerats com els que menys evidència aporten, és a dir, es troben entre els més sotmesos a biaixos de selecció i d'informació. Tot i això, les sèries de casos poden proporcionar informació sobre noves tècniques que poden suposar innovacions rellevants i servir de base per a la realització d'assajos clínics que confirmen els resultats²⁰. En el cas de la secció del *filum terminale*, tal com està establert en la recerca en humans, totes les innovacions haurien d'estar sotmeses (com més aviat millor per tal de garantir la protecció dels pacients i el rigor científic) a un protocol escrit, explícit i amb un disseny adequat, que pogués ser revisat de forma externa¹⁹, aspectes en què van estar d'acord els experts consultats.

CONCLUSIONS

La tècnica quirúrgica acceptada per al tractament de l'MCI és la descompressió de la unió craniocervical. La secció del *filum terminale* com a tractament de l'MCI es basa en la teoria de la tracció caudal que actualment no es considera vàlida. Els resultats observats de l'únic estudi que avalua la secció del *filum terminale* com a tractament de l'MCI podrien estar indicant l'existència de factors que intervenen en la seva patogènia i que no s'estan tenint en compte. Tot i això, la baixa qualitat de l'estudi fa necessari el disseny d'estudis que permetin avaluar de forma rigorosa els resultats d'aquesta tècnica quirúrgica fins poder recomanar la secció del *filum terminale* per al tractament de l'MCI.

BIBLIOGRAFIA

1. Tubbs RS, Lyerly MJ, Loukas M, Shoja MM, Oakes WJ. The pediatric Chiari I malformation: a review. *Childs Nerv Syst.* 2007;23(11):1239-50.
2. Tubbs RS, Elton S, Grabb P, Dockery SE, Bartolucci AA, Oakes WJ. Analysis of the posterior fossa in children with the Chiari 0 malformation. *Neurosurgery.* 2001;48(5):1050-4.
3. Tubbs RS, Iskandar BJ, Bartolucci AA, Oakes WJ. A critical analysis of the Chiari 1.5 malformation. *J Neurosurg.* 2004;101(2 Suppl):179-83.
4. Milhorat TH, Chou MW, Trinidad EM, Kula RW, Mandell M, Wolpert C, et al. Chiari I malformation redefined: clinical and radiographic findings for 364 symptomatic patients. *Neurosurgery.* 1999;44(5):1005-17.
5. Tubbs RS, Loukas M, Shoja MM, Oakes WJ. Observations at the craniocervical junction with simultaneous caudal traction of the spinal cord. *Childs Nerv Syst.* 2007;23(4):367-9.
6. Steinbok P, Garton HJ, Gupta N. Occult tethered cord syndrome: a survey of practice patterns. *J Neurosurg.* 2006;104(5 Suppl):309-13.
7. Tubbs RS, Bui CJ, Rice WC, Loukas M, Naftel RP, Holcombe MP, et al. Critical analysis of the Chiari malformation Type I found in children with lipomyelomeningocele. *J Neurosurg.* 2007;106(3 Suppl):196-200.
8. Paul KS, Lye RH, Strang FA, Dutton J. Arnold-Chiari malformation. Review of 71 cases. *J Neurosurg.* 1983;58(2):183-7.
9. Bejjani GK. Definition of the adult Chiari malformation: a brief historical overview. *Neurosurg Focus.* 2001;11(1):E1.
10. Meadows J, Kraut M, Guarnieri M, Haroun RI, Carson BS. Asymptomatic Chiari Type I malformations identified on magnetic resonance imaging. *J Neurosurg.* 2000;92(6):920-6.
11. Mikulis DJ, Diaz O, Eggin TK, Sanchez R. Variance of the position of the cerebellar tonsils with age: preliminary report. *Radiology.* 1992;183(3):725-8.
12. Ventureyra EC, Aziz HA, Vassilyadi M. The role of cine flow MRI in children with Chiari I malformation. *Childs Nerv Syst.* 2003;19(2):109-13.
13. Mazzola CA, Fried AH. Revision surgery for Chiari malformation decompression. *Neurosurg Focus.* 2003;15(3):E3.
14. Haroun RI, Guarnieri M, Meadow JJ, Kraut M, Carson BS. Current opinions for the treatment of syringomyelia and chiari malformations: survey of the Pediatric Section of the American Association of Neurological Surgeons. *Pediatr Neurosurg.* 2000;33(6):311-7.
15. Royo-Salvador MB. A new surgical treatment for syringomyelia, scoliosis, Arnold-Chiari malformation, kinking of the brainstem, odontoid recess, idiopathic basilar impression and platybasia. *Rev Neurol.* 1997;25(140):523-30.
16. Royo-Salvador MB, Solé-Llenas J, Doménech JM, González-Adrio R. Results of the section of the filum terminale in 20 patients with syringomyelia, scoliosis and Chiari malformation. *Acta Neurochir (Wien).* 2005;147(5):515-23.

17. Grupo de trabajo sobre guías de práctica clínica. Elaboración de guías de práctica clínica en el Sistema Nacional de Salud. Manual metodológico. Madrid: Plan Nacional para el Sistema Nacional de Salud del Ministerio de Sanidad y Consumo: Instituto Aragonés de Ciencias de la Salud-I+CS; 2007. Guías de Práctica Clínica en el Sistema Nacional de Salud: I+CS N°2006/1.

18. Margo CE. When is surgery research? Towards an operational definition of human research. *J Med Ethics*. 2001;27(1):40-3.

19. Pons JM. Procedimiento experimental, innovador y establecido. Ética y ciencia en la introducción de la tecnología médica. *Gac Sanit*. 2003;17(5):422-9.

20. Albrecht J, Meves A, Bigby M. Case reports and case series from *Lancet* had significant impact on medical literature. *J Clin Epidemiol*. 2005;58(12):1227-32.



World Health Organization
Collaborating Centre for
Health Technology Assessment



INAHTA

Membre fundador



Membre corporatiu



Membre corporatiu

ciberesp

Membre corporatiu