

REPORTE DE CASO

Hallazgo incidental de hueso interparietal wormiano en un caso de fractura múltiple de cráneo

Incidental finding of interparietal wormian bone in a clinical case of multiple skull fractures

Achado incidental de osso interparietal wormiano em um caso de fratura múltipla do crânio

Carlos Enrique Mamani-Rodriguez^{1*,3}, Carlos Alberto Soler-Murillo², Mauricio Emanuel De Sampaio-Ricardo³, Freddy Arias-Suárez⁴, Mauricio Ariel Paredes-Jarro⁴, Pascual Rubén Valdez-Carlomagno³

Recibido: 10 de noviembre de 2021. Aceptado: 29 de abril de 2022

*Correspondencia: Carlos Enrique Mamani.
carlosmamani1981@gmail.com

1 Unidades de Neurocirugía y 2 Diagnóstico por Imágenes, Hospital Zonal General de Agudos “Mariano y Luciano de la Vega”, Moreno, Argentina.

3 Universidad Nacional de La Matanza, Departamento de Ciencias de la Salud, San Justo, Argentina.

4 Universidad Autónoma del Beni, Escuela de Medicina, Trinidad, Departamento del Beni, Estado Plurinacional de Bolivia.

Resumen

Los huesos wormianos son estructuras óseas craneales supernumerarias. Su origen es multifactorial, estando en varias ocasiones relacionado a enfermedades del metabolismo óseo. En esta publicación, el objetivo es describir el hallazgo de un hueso wormiano interparietal en el contexto de un caso de fractura múltiple de cráneo por trauma. Presentación del caso: una paciente pediátrica de sexo femenino, sin antecedentes personales de relevancia, sufrió un traumatismo de cráneo moderado. Es evaluada en el Departamento de Emergencias, evidenciándose un cefalohematoma parietal izquierdo. En la tomografía computada de encéfalo se evidenciaron dos fracturas lineales, longitudinal y transversal, correspondientes a los huesos parietal y occipital, asociadas a la existencia de un hueso wormiano interparietal (*os incarum*). No se observaron lesiones intracraneales. La paciente fue hospitalizada, presentando una buena evolución hasta el momento de la externación. Luego de un seguimiento de 8 meses, no se evidenció ninguna complicación, mostrándose mejoría radiológica. Conclusión: los huesos wormianos constituyen variaciones anatómicas craneales. Su hallazgo incidental en los estudios por imágenes puede originar dificultades diagnósticas en determinadas situaciones, como puede ocurrir en el traumatismo de cráneo con presencia de fracturas, por lo que resulta importante conocer sus características relevantes.

Palabras clave: cráneo, fractura, hueso wormiano, pediatría.



Esta obra está bajo una Licencia Creative Commons Atribución 4.0 Internacional (CC BY 4.0).

REPORTE DE CASO

Abstract

The Wormian bones are supernumerary bony cranial structures. Their origin is multifactorial, being many times related to metabolic bone diseases. In this article, the objective is to describe the finding of an interparietal Wormian bone in the context of a clinical case of multiple skull fracture due to trauma. Case report: a female pediatric patient, with no medical history, suffered a moderate traumatic brain injury. She was evaluated at the medical emergency department, finding a left parietal cephalohematoma in the clinical exam. A computed tomography was performed. It showed two linear non-displaced fractures in both parietal and occipital bones, associated with an incidental Wormian interparietal bone (*os incarum*). There were no intra-axial lesions. The patient was hospitalized and had a good clinical evolution until the time of discharge. At eight months follow-up, no complications were found, showing radiological improvement. Conclusion: Wormian bones constitute cranial anatomical variations. Their incidental finding in imaging studies can cause diagnostic difficulties in certain situations, as may occur in head trauma with the presence of fractures, so it is important to know their relevant characteristics.

Keywords: skull, fracture, Wormian bone, pediatrics.

Resumo

Os ossos wormianos são estruturas ósseas craneais supernumerarias. Sua origem é multifatorial, estando em várias ocasiões relacionadas a enfermidades do metabolismo ósseo. Nesta publicação, o objetivo é descrever a descoberta de um osso verme interparietal no contexto de um caso clínico com fratura múltipla do crânio devida a trauma. Relato do caso: uma paciente pediátrica do sexo feminino, sem antecedentes pessoais de relevância sofreu um traumatismo de crânio moderado. É avaliada em um departamento de Emergências, onde se evidenciou um cefalohematoma parietal esquerdo. Foi realizado uma tomografia computadorizada de encéfalo, na qual se observou duas fraturas lineares, longitudinal e transversal, correspondentes aos ossos parietais e occipital, associadas a presença de um osso wormiano interparietal (*os incarum*). Não se observaram lesões intracranianas. A paciente foi hospitalizada, apresentando uma boa evolução até o momento da externação. Logo de um seguimento de 6 meses, não se evidenciou nenhuma complicação se mostrando melhoria radiológica. Conclusão: Os ossos wormianos constituem variações anatómicas cranianas. A sua descoberta incidental em estudos de imagem pode causar dificuldades de diagnóstico em certas situações, como pode ocorrer em traumatismos cranianos com a presença de fraturas, pelo que é importante conhecer as suas características relevantes.

Palavras-chave: crânio, fratura, osso wormiano, pediatria.

Fuentes de financiamiento:

Las y los autores declaran no tener ninguna afiliación financiera ni participación en ninguna organización comercial que tenga un interés financiero directo en cualquier asunto incluido en este manuscrito.

Conflicto de intereses:

Las y los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Introducción

Los huesos wormianos son estructuras supernumerarias, que se originan en el cráneo a partir de centros de osificación independientes, ubicados a lo largo de las líneas de sutura (1). El término es referido al anatomista danés Ole Worm, quien realizó su descripción detallada en el siglo XVII (2). En 1963, Brothwell investigó la prevalencia en diversos grupos étnicos e informó los siguientes resultados: chinos (80,32 %), alemanes (75%), australianos (72,58%), melanesios (64,15%) y anglosajones (55,56%) (3). Estos datos resultan de estudios arqueológicos, por lo que dichos resultados difieren respecto a los hallazgos obtenidos en población viva mediante el uso de estudios de diagnóstico por imágenes disponibles. De acuerdo con una investigación realizada por Pryles y Khan sobre población infantil escolar y hospitalaria, la prevalencia se encuentra entre el 8 y 15% de la población, incrementándose a 54% en aquellos hospitalizados (4). Parker, por su parte, encontró una prevalencia del 14%, a partir de estudios radiográficos en población general (5). El 93% de los huesos wormianos se encuentran en las suturas que bordean los huesos parietales (1). La ubicación más frecuente se relaciona con las suturas coronal y lambdaoidea, preferentemente del lado derecho (2). El hueso incaico (*os incarum*) es único, de gran tamaño y se ubica en el espacio fontanelar posterior. Dicha denominación fue debida a la creencia de que era privativo de las poblaciones del Antiguo Perú (2). Algunos estudios informan que los huesos wormianos presentan mayor ocurrencia en varones, mientras otros consideran que no hay diferencias entre sexos (6,7). Resulta difícil determinar la causa y el momento de su formación. Factores genéticos y ambientales fueron descritos. Con respecto a la patogenia, se mencionan algunos mecanismos, como la osificación reducida ocurrida en ciertas enfermedades metabólicas, el aumento del espacio entre las suturas, la distensión de los tejidos meníngeos y la aplicación de fuerzas mecánicas sobre la calota craneal (intencional externa o por hipertensión intracraneal) (2). En varios síndromes genéticos, los huesos wormianos son comunes, por lo que contribuyen a su diagnóstico. Los objetivos del presente artículo consisten en describir el caso clínico de un paciente pediátrico con fractura de cráneo, así como discutir los hallazgos del proceso diagnóstico y su posible etiología.

Presentación del caso¹

Una paciente de etnia mestiza americana de sexo femenino y 9 meses de edad (nacida en término a las 40 semanas, con un peso de 3,460 kg.), sin antecedentes médicos, fue asistida en el departamento de Emergencias por haber sufrido un traumatismo de cráneo, secundario a un accidente doméstico (caída desde una altura de 140 centímetros), mientras se encontraba jugando sobre unos escalones. Presentó pérdida del conocimiento durante algunos segundos. Se detallaron los siguientes datos provenien-

tes del examen físico: frecuencia cardíaca de 100 latidos/minuto, frecuencia respiratoria de 23 ciclos/minuto y temperatura axilar de 36°C. La paciente se encontraba con un Glasgow Coma Score de 15/15, sin alteraciones neurológicas, excepto por la presencia de un cefalohematoma en la región parietal izquierda. Como datos adicionales, presentaba 9,5 kg de peso, una talla de 75 cm y un perímetro cefálico de 49 cm. Se obtuvieron los siguientes resultados en los estudios de laboratorio: leucocitos 10.930/mm³ (neutrófilos 65%, linfocitos 22%), hemoglobina 11 gr/dl, hematocrito 32,5%, plaquetas 420.000/mm³, glucemia 84 mg/dl, urea 14 mg/dl, creatinina de 0,1 mg/dl, albúmina 3,8 g/dl, TGO 33 UI/L, TGP 16 UI/L, colesterol 131 mg/dL, HDL 30 mg/dL, triglicéridos 115 mg/dL, calcemia 9 mg/dl, fosfatemia 4,1 mg/dl, magnesemia 2.1 mg/dl, TSH 4.13 μUI/mL. Una tomografía computada de encéfalo fue realizada (Figura 1).

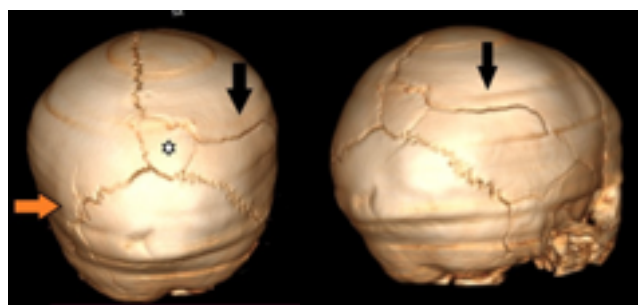


Figura 1. Tomografía computada de encéfalo con reconstrucción tridimensional volumétrica. Izquierda: presencia de fractura longitudinal izquierda (flecha de color naranja), que atraviesa la sutura lambdaoidea izquierda con dirección hacia el foramen magno. Hueso interparietal (estrella) de hallazgo incidental, junto a una línea de fractura (flecha de color negro) que parte desde el anterior y se dirige por la cara exocraneal del hueso parietal derecho en sentido horizontal, incurvándose luego en dirección de la escama del hueso temporal.

Como resultado, se observaron dos hipodensidades lineales correspondientes a fracturas de cráneo. Una de ellas, parasagital y de dirección cráneo caudal, atravesaba la sutura lambdaoidea izquierda alcanzando el borde posterior del foramen magno. La otra, de dirección transversal abarcaba la parte posterior del hueso parietal derecho. A su vez, relacionada con la anterior se evidenció un hueso wormiano entre ambos huesos parietales (*os incarum*), de forma poligonal y bordes irregulares (27,2 mm x 33,1 mm). Se decidió la internación del paciente, mostrando una adecuada respuesta al tratamiento conservador, por lo que fue externado luego de 3 días de hospitalización. Durante el seguimiento ambulatorio, la paciente no desarrolló ninguna complicación, mostrando un desarrollo madurativo dentro de los parámetros normales. Se efectuaron estudios radiográficos

1. Los autores manifiestan que los resultados del presente artículo son publicados desde un punto de vista estricto académico y destinado a la difusión del conocimiento, sin emitir ninguna opinión o intervención vinculadas a las circunstancias que originaron la patología explicitada, así como las eventuales consecuencias que pudieran ocurrir.

de control, los cuales mostraron una progresiva atenuación de las líneas de fractura hasta su desaparición (Figuras 2 y 3).

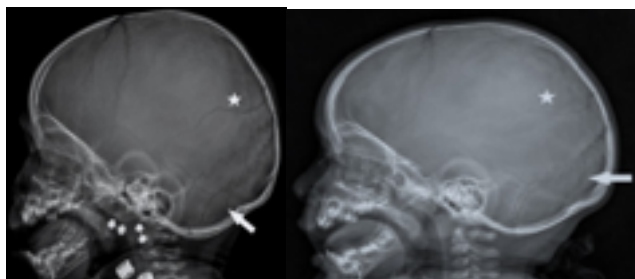


Figura 2. Radiografías de cráneo en posición de perfil realizada en el momento del ingreso hospitalario (imagen a la izquierda). Se aprecian dos fracturas, una lineal con orientación horizontal sobre la parte posterior del hueso parietal (estrella), a una fractura longitudinal que cruza la sutura lambdaoidea. En la radiografía homónima a los 60 días de seguimiento, se aprecian signos de reabsorción de ambas fracturas, indicando la resolución mediante el manejo conservador (imagen a la derecha).

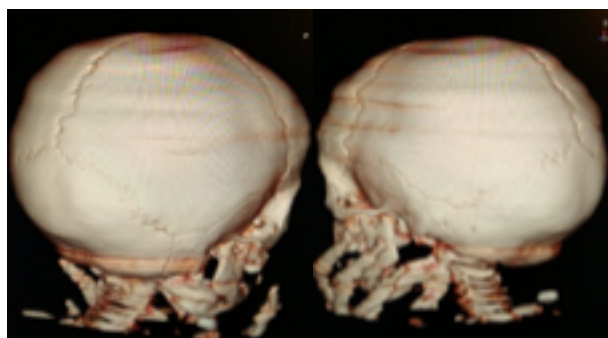


Figura 3. Tomografía computada de encéfalo con reconstrucción tridimensional volumétrica. Ausencia de signos de fractura a los 8 meses de seguimiento.

Discusión

Los traumatismos de cráneo moderados a graves en personas con huesos wormianos pueden constituir un desafío para el equipo de salud, como consecuencia de la eventual confusión entre fracturas y suturas supernumerarias.

Conviene aclarar que la mayoría de los procesos postnatales de crecimiento y diferenciación craneales ocurren durante los primeros 2 años de vida, dado el desarrollo de los principales centros de osificación. Las regiones parietal y occipital presentan, con frecuencia, suturas accesorias. La ausencia de fusión en los centros de osificación puede dar lugar a la aparición de huesos independientes (8).

Los huesos wormianos no son infrecuentes en la población infantil. En un estudio poblacional retrospectivo se observó, en un grupo de niños de 0 a 3 años de vida y sin factores de riesgo para desórdenes genéticos (n= 605), una prevalencia del 53%, utilizando tomografía computada. Un 10% presentaba cuatro huesos wormianos. En el subgrupo de pacientes con trauma de cráneo, el promedio de huesos wormianos fue de 1,48 para el rango etario de 6 a 12 meses (9). El 64% de los casos se localizaron cerca de la sutura lambdaoidea, algo que se repitió en otro estudio (10). Otras ubicaciones menos habituales correspondieron a las suturas coronal y sagital. Los huesos wormianos constituyen, en ocasiones, marcadores de enfermedades. Algunas corresponden a patologías de etiología genética (Tabla 1).

Ciertas características (localización, cantidad y tamaño) ayudan a diferenciar la variación anatómica de una patología desconocida. Se consideran significativas las siguientes características: más de 10 en número, área medida mayor a 24 mm², o la existencia de un patrón de mosaico. En el caso de la osteogénesis imperfecta, la mencionada cantidad se encontró en el 88% de 81 casos diagnosticados (11).

Genéticas	No genéticas
- Craneosinostosis de causa genética (síndromes)	- Hidrocefalia
- Picnodisostosis	- Craneosinostosis no genéticas
- Osteogénesis imperfecta	- Hipertensión intracraneana
- Raquitismo en fase curativa	- Mal posicionamiento cefálico
- Enfermedad de Menkes (kinky hair syndrome)	
- Displasia cleidocraneal	
- Hipotiroidismo	
- Hipofosfatasa	
- Síndrome otopalatodigital	
- Paquidermoperiostosis	
- Síndrome de Down	
- Acro-osteolisis primaria (Enfermedad de Hadju-Cheney)	

Figura 1. Patologías asociadas con la formación de huesos wormianos.

Es posible que factores mecánicos, como una permanente posición en decúbito supino durante la primera infancia haya contribuido a la formación de un hueso wormiano interparietal. El mecanismo subyacente se atribuiría a la tensión posicional sobre la duramadre, lo que conlleva a una expansión del espacio entre las suturas (12). De esa forma se produciría un hueso incaico por un efecto ambiental no intencional (13). Se considera que la ubicación craneal posterior de los huesos wormianos estaría más relacionada con factores ambientales (7). Esto claramente contrasta con las patologías genéticas, en las que se produce una osificación anómala, y las enfermedades en las que se produce una expansión desde el compartimiento intracraneal, entre ellas, la hidrocefalia (10).

Dado que la existencia de un hueso Wormiano constituye un área de alteración de la morfogénesis ósea, una fractura lineal que atraviesa su extensión podría provocar el riesgo de desplazamiento de algunos de sus bordes, con consecuencias nocivas para los tejidos subyacentes, secundarias al efecto de cizallamiento óseo (14). La presencia de huesos wormianos conlleva el riesgo de una mala interpretación radiológica, debido a su similitud con las fracturas (1). Estas últimas tienen bordes anfractuados, y pueden bifurcarse o atravesar líneas de sutura. Las suturas presentan algunas de las siguientes características: sus bordes son escleróticos, no se bifurcan, se hallan interdigitadas (patrón en “zig-zag”) y no provocan diástasis. La existencia de fracturas craneales patológicas, o traumáticas producidas por un mecanismo de difícil explicación, aumenta la sospecha de una enfermedad secundaria. El diagnóstico de maltrato o abuso infantil también debe considerarse, en especial tomando en cuenta la interrelación entre los resultados del interrogatorio, el mecanismo de trauma implicado y los hallazgos clínicos. En el presente caso, luego de la evaluación por el equipo multidisciplinario, se concluyó que no existieron datos sugestivos al res-

pecto. La disponibilidad de tomografía computada de encéfalo con adquisiciones volumétricas y reconstrucción multiplanar 3D VR (volume rendering) con cortes entre 0,8 y 1mm contribuye a establecer el diagnóstico diferencial entre huesos wormianos y fracturas (15).

En el presente caso, la paciente sufrió un traumatismo de cráneo por caída de una altura importante para su edad, por lo que es mandatorio la realización de estudios por imágenes. La localización interparietal corresponde al denominado hueso incaico (*os incarum*), hallado de manera incidental. Resulta importante determinar si, a pesar de la gravedad del traumatismo, existe una enfermedad subyacente. Si bien el tamaño puede ser sugestivo, el paciente no presentó ningún otro signo orientativo de enfermedad genética, incluso en el seguimiento a ocho meses desde el traumatismo. Se podría conjeturar un mecanismo ambiental para el desarrollo del hueso wormiano; sin embargo, no hay datos clínicos sugestivos cuando se interrogó al grupo familiar. Cabe considerar también la posibilidad que la presencia del hueso wormiano hallado sea constitucional, en vista de la etnia a la que pertenece la paciente. Aun así, como se mencionó ut supra esta variante anatómica es altamente prevalente en los estudios arqueológicos.

Conclusiones

- El hueso interparietal wormiano representa una variante anatómica relativamente frecuente, de acuerdo con los métodos de diagnóstico por imágenes vigentes.
- En aquellas personas sin una causa genética definida, dichos huesos pueden ser encontrados de manera incidental.
- Resulta necesario considerar la existencia y morfología de los huesos wormianos, en vista que pueden presentar implicancias desafiantes, ya que existe la posibilidad de confusión diagnóstica con fracturas de cráneo.

Agradecimientos: Se agradece la participación voluntaria y desinteresada del Dr. João Victor de Barros Guimarães, quien contribuyó con la traducción al portugués de los contenidos del presente artículo.

Referencias

- 1 Sibel C, Funda A, Nuket M. The incidence and topographic distribution of sutures including Wormian bones in human skulls. *J Craniofac Surg*. 2015;26:1687–90.
- 2 Bellary S, Steinberg A, Mirzayan N, Shirak M, Tubbs R, Cohen-Gadol A. Wormian bones: a review. *Clin Anat*. 2013;26:922–7.
- 3 Brothwell DR: *Digging Up Bones*. London, British Museum of Natural History, 1963
- 4 Pryles C, Khan A. Wormian bones: a marker of CNS abnormality? *Am J Dis Child* 1979;133: 380.
- 5 Parker CA. 2009. Wormian Bones. Charleston, SC: BiblioLife LLC. p 19–24
- 6 Jeanty P, Silva S, Turner C. Prenatal diagnosis of wormian bones. *J Ultrasound Med*. 2000;19:863–9.
- 7 Sanchez Lara P, Graham J, Hing A. The morphogenesis of wormian bones: a study of craniosynostosis and purposeful cranial deformation. *Am J Med Genet*. 2007;143 A:3243–51.
- 8 Muroi A, Enomoto T, Ihara S, Ishikawa E, Inagaki T, Matsumura A. Developmental changes in the occipital cranial sutures of children less than 2 years of age. *Childs Nerv Syst*. 2020;4:1784–813.

- 9 Marti B, Sirinelli D, Maurin L, Carpentier E. Wormian bones in a general paediatric population. *Diagn Interv Imaging*. 2013;94:428–32.
- 10 Bergman R, Afifi A, Miyauchi R. Skeletal systems: Cranium. In: *Compendium of human anatomical variations*. Baltimore: Urban and Schwarzenberg; 1988. p. 197–205.
- 11 Cremin B, Goodman H, Spranger J. Wormian bones in osteogenesis imperfecta and other disorders. *Skelet Radiol*. 1982;8:35–8.
- 12 Graham J, Kreutzman J, Earl D. Deformational brachycephaly in supine-sleeping infants. *J Pediatr*. 2005;146(2):253–7.
- 13 Barberini F, Bruner E, Cartolari R. An unusually-wide human bregmatic Wormian bone: anatomy, tomographic description, and possible significance. *Surg Radiol Anat*. 2008;30:683–7.
- 14 Guerrero Jazo F, Tovar Spinoza Z, Esparza Gutiérrez S, Hernández Chávez E, Monroy Rizo E. Rupture or traumatic dislocation of cranial suture on infants, involvement of the lambdoidal accessory bones (Wormian bones): case presentation and analysis. *Childs Nerv Syst*. 2019;35:2233–6.
- 15 Idriz S, Patel J, Renani S, Allan R, Vlahos I. CT of normal developmental and variant anatomy of the pediatric skull: distinguishing trauma from normality. *Radiographics*. 2015;35(5):1–17.