



ORIGINAL BREVE

Sinus dérmico sacrocoxígeo: importancia clínica y manejo

J.F. Martínez-Lage^{a,*}, F.J. Villarejo Ortega^b, M. Galarza^a,
M. Felipe-Murcia^a y M.J. Almagro^a

^aUnidad de Neurocirugía Pediátrica, Servicio Regional de Neurocirugía, Hospital Universitario, Virgen de la Arrixaca, Murcia, España

^bServicio de Neurocirugía, Hospital del Niño Jesús, Madrid, España

Recibido el 19 de julio de 2010; aceptado el 26 de agosto de 2010

PALABRAS CLAVE

Espina bífida occulta;
Sinus dérmico
sacrocoxígeo;
Fosita coxígea;
Hoyuelo coxígeo;
Sinus interglúteo;
Malformaciones
congénitas espinales

Resumen

Introducción: La presencia de un seno dérmico en la región dorsal de los niños constituye un motivo habitual de consulta en los servicios de neurocirugía pediátrica. Su frecuencia y posibles complicaciones hacen que su diagnóstico y tratamiento precoces sean importantes.

En este trabajo revisamos los criterios sobre el tratamiento de los senos sacrocoxígeos para sugerir un manejo racional de acuerdo con los datos publicados para evitar, en lo posible, derivaciones y exploraciones costosas e innecesarias.

Material y métodos: Se revisaron las historias de niños diagnosticados de sinus dérmico sacrocoxígeo vistos en nuestro hospital durante el período 2005–2009. Asimismo se realizó una búsqueda bibliográfica de los artículos más relevantes sobre el tema.

Resultados: Durante estos años se vieron 32 pacientes con fosita coxígea. La mayoría de niños fueron remitidos por cirujanos pediátricos, pediatras de zona o pediatras de los servicios de urgencia de los hospitales de nuestra región. Diecisiete niños fueron estudiados con pruebas de neuroimagen y 15 fueron evaluados exclusivamente mediante exploración física. En ninguno de los pacientes se apreció penetración intraraquídea.

Conclusiones: De acuerdo a nuestra experiencia y a la bibliografía consultada pensamos que la exploración clínica es suficiente para un diagnóstico y manejo correcto de estos senos, siendo el dato más importante la situación de la fosita coxígea dentro de los límites del repliegue interglúteo. En casos dudosos de conexión del seno con la duramadre se deberá realizar una ecografía como prueba de primera línea y, si es necesario, una resonancia magnética y consulta con Neurocirugía.

© 2010 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: juanf.martinezlage@cablemurcia.com (J.F. Martínez-Lage).

KEYWORDS

Occult spinal dysraphism;
Sacro-coccygeal dermal sinus;
Coccygeal pit;
Coccygeal sinus;
Intergluteal sinus;
Congenital spinal anomalies

Coccygeal dermal sinus: Clinical relevance and management**Abstract**

Introduction: The presence of a dermal sinus on a child's back is a common cause for paediatric neurosurgical consultation. The relative frequency of these lesions and fears on their possible clinical consequences enhances the importance of early diagnosis and treatment. With this work we aimed to search for the most relevant clinical features that might indicate an intradural penetration of the lesions and that may advise performing neuroimaging studies and a paediatric neurosurgical consultation.

Patients and methods: The records pertaining to children diagnosed with sacro-coccygeal pits seen at our institution during the years 2005–2009 were reviewed. A Pub Med search of the most relevant articles on the subject was also performed.

Results: Thirty-two children diagnosed with sacro-coccygeal pits were seen at our institution in the study period. Most cases had been sent for neurosurgical consultation by their paediatricians, paediatric surgeons or paediatricians of the emergency services in our region. Seventeen patients were submitted to some neuroimaging study and 15 were evaluated only by physical examination. In no patient was an intradural penetration of the lesion observed. The lack of reports on coccygeal sinuses probably reflects the unimportance given to these lesions in the absence of neurological involvement.

Conclusions: A detailed physical examination can reduce the number of neuroimaging studies, an intergluteal localization of the sinus being the most important diagnostic clue. Doubtful cases of an intradural penetration of the lesion can be further evaluated by ultrasound as a preliminary screening tool and by magnetic resonance and neurosurgical consultation if deemed necessary.

© 2010 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Diversos tipos de lesiones cutáneas pueden presentarse en la línea media a lo largo de la región dorsal de los niños, como angiomias, áreas de hipertrichosis focal, lipomas subcutáneos, cicatrices congénitas tipo «quemadura de cigarrillo», y una variedad de fositas, hoyuelos y tractos fistulosos cuyo inicio está en la piel¹⁻³. Más del 50% de los casos de espina bífida oculta (EBO) se acompañan de alguna de estas lesiones. El seno dérmico se caracteriza por ser una estructura tubular que comienza en la piel y se introduce en profundidad atravesando diversos planos pudiendo acabar en el subcutáneo, fascia, hueso, espacio extradural o penetrar dentro de la duramadre^{1,2}. Estos tractos pueden terminar en el cono medular o en un quiste epidermoide o dermoide intradural. Por definición, la luz del tracto fistuloso del seno dérmico está recubierta por epitelio plano poliestratificado^{1,2}. La bibliografía médica contiene numerosos trabajos que describen las complicaciones infecciosas que pueden originarse a partir de los senos dérmicos auténticos: meningitis y abscesos intradurales, etc.^{1,2,4,5}. Los tratados de pediatría generalmente recomiendan realizar una exploración exhaustiva de la espalda de los recién nacidos para detectar la presencia de estos orificios congénitos. Su detección es decisiva para realizar precozmente un estudio de neuroimagen y llevar a cabo un tratamiento quirúrgico precoz^{1,2,5}. Un tipo de seno dérmico cuya naturaleza es casi siempre inocente, pero que produce gran ansiedad en padres y pediatras, y que genera un gran número de consultas, es el seno dérmico coxígeo o sacrocoxígeo³. El sinus dérmico sacrocoxígeo consiste en una depresión superficial o profunda dentro del, o junto al, repliegue glúteo³.

El mejor conocimiento de las posibles complicaciones infecciosas de los senos dérmicos, y de sus consecuencias, por parte de los pediatras ha llevado al aumento del número de consultas en los servicios de neurocirugía pediátrica relacionados con la presencia de estas lesiones. El objetivo de nuestro trabajo fue revisar nuestra experiencia para sentar criterios sobre el tratamiento de los senos sacrocoxígeos y sugerir un manejo racional, de acuerdo a los datos publicados, para evitar, en lo posible, derivaciones y exploraciones costosas e innecesarias.

Pacientes y métodos

Se revisaron retrospectivamente las historias clínicas de todos los niños diagnosticados de sinus, hoyuelo, o fosita coxígeos o sacrocoxígeos (CIE 685.1) vistos en la consulta externa de neurocirugía de nuestro hospital regional durante los años 2005–2009. Se recogieron los datos epidemiológicos y clínicos en formularios diseñados para este fin, así como el número y tipo de estudios de neuroimagen realizados a estos niños. Asimismo, se registraron los datos referentes al manejo (observación o cirugía) y a la evolución de los pacientes. Se excluyeron del estudio los niños diagnosticados de EBO con seno dérmico situado por encima del repliegue interglúteo (n=18), operados o en seguimiento. Asimismo se realizó una búsqueda bibliográfica en PubMed con las entradas «coccygeal» o «sacrococcygeal» más «dermal sinus», «dimple» o «pit». La búsqueda solo mostró un resultado específico sobre seno coxígeo, tratándose de una revisión realizada por Weprin y Oakes³, siendo los restantes artículos descripciones que incluyen

sinus dérmicos espinales por encima del pliegue glúteo o casos clínicos individuales^{1,5}.

Resultados

El grupo de estudio comprendió 32 niños (17 niñas y 15 niños), cuyas edades oscilaron de recién nacido a 14 años (media de 8,8 meses). Aproximadamente, un tercio de los pacientes había sido remitido por el pediatra de atención primaria, otro tercio por el cirujano pediátrico, y el resto desde los servicios de urgencia de los diversos hospitales con pediatría de nuestra región. El motivo de la consulta en todos los casos fue el hallazgo de una lesión cutánea, tipo fosita u hoyuelo, situado dentro de los límites del repliegue glúteo (fig. 1). En dos niños se asociaba a una pequeña tumoración situada bajo la lesión. El niño de 14 años tenía además enuresis y encopresis. Ninguna de estas lesiones presentaba supuración o descarga de material caseoso o pelos. Un recién nacido presentaba hidrocefalia malformativa, de la que fue operado, extirpándose también el seno en el mismo procedimiento anestésico. La exploración neurológica fue normal en todos los casos no existiendo indicios de afectación de esfínteres. En la mayoría de los casos, el médico remitente sugería el diagnóstico correcto de seno sacrocoxígeo pero, aún así, solicitaba valoración neuroquirúrgica. Veintiún pacientes acompañaban algún estudio neurorradiológico, como radiografías (n=8), resonancia magnética (RM) (n=8), ecografía (n=6), y tomografía computarizada (n=1). En el resto de niños solo se había realizado examen físico reservando la práctica de estudios adicionales a la decisión del neurocirujano. Una vez vistos los pacientes en consulta de neurocirugía, no se consideró necesaria la realización de otras pruebas de neuroimagen, y se redactó un informe sugiriendo el seguimiento de los niños por parte del pediatra, dejando abierta la posibilidad de una revisión ulterior caso de ser necesario. Solo en 6 casos se citó a los niños para revisión en nuestra consulta, por motivos diversos, siendo posteriormente evaluados clínicamente y dados de alta.



Figura 1 Fotografía de un caso reciente de una niña de 3 años con seno sacrocoxígeo.

Discusión

Embriología del sinus dérmico coxígeo

El tubo neural se forma por el proceso de neurulación (días 18–27 de la vida embrionaria). El neuroporo anterior cierra entre los días 24 y 25 y el neuroporo posterior entre los días 26 y 27. El neuroporo posterior se sitúa a nivel L1–L2. La parte caudal se forma entre los días 28 y 48 y sigue 3 pasos: a) *proliferación*, formación de la masa celular caudal, por debajo del neuroporo posterior, constituida por células indiferenciadas empaquetadas dentro de una cubierta ectodérmica; b) *canalización*, las células se vacuolizan y forman el tubo neural, y c) *regresión caudal*: entre el final de la médula y el vestigio medular coxígeo se produce la regresión quedando reducido el tubo neural a una estructura fibrosa, el filum terminale^{2,5,6}. Posteriormente la médula «asciende» dentro del canal raquídeo por el proceso de regresión caudal y por un crecimiento mayor de la columna respecto al de la médula. El origen de los senos dérmicos se atribuye a una defectuosa separación del neuroectodermo y el ectodermo cutáneo^{2,5,6}. El fracaso de la obliteración del vestigio medular coxígeo podría también ser el origen de estos senos coxígeos. El filum terminal externo es la porción del mismo que empieza en el final del saco dural y termina en la superficie dorsal del coxis o sacro donde se funde con el periostio, siendo en esta zona donde frecuentemente se manifiesta el hoyuelo sacrocoxígeo externamente⁶.

Epidemiología y clínica del sinus coxígeo

Los senos sacrocoxígeos constituyen una de las anomalías más frecuentes que se encuentran en el recién nacido, estimándose su prevalencia entre el 1 y 4%^{1–3,7,8}. La anomalía afecta a los dos sexos casi por igual. El seno sacro-coxígeo se presenta en el repliegue interglúteo, como una depresión más o menos profunda³. La exploración neurológica de los niños afectados es normal, así como la función de los esfínteres. El trayecto del seno sigue, típicamente, un curso descendente y se palpa fijado a la parte inferior del sacro o al coxis^{1–3}. La distancia de su entrada respecto al ano es inferior a 2,5 cm⁷. No presenta salida de líquido, material de descamación epitelial, ni pelos. Ocasionalmente, puede acompañarse de una pequeña inflamación de tejido subcutáneo o de enrojecimiento local³.

Diagnóstico diferencial y estudios de neuroimagen

El diagnóstico diferencial se establece con los senos dérmicos auténticos, que pueden penetrar desde la piel hasta la duramadre o incluso dentro de ella, para acabar en el cono medular, entre las raíces o en un quiste epidermoide o dermoide^{1–3}. Sin embargo estos senos dérmicos se suelen presentar por encima de los glúteos (fig. 2), o ir acompañados de otros marcadores cutáneos de EBO como angiomas, hipertriosis, lipomas etc., o bien de alteraciones neurológicas u ortopédicas^{1–3}. En la tabla 1 se recogen los «signos de alerta» que sugieren la existencia de penetración profunda y que indicarían la realización de estudios de neuroimagen (ultrasonidos o RM).



Figura 2 Línea teórica de separación del seno sacrocoxígeo y del seno dérmico auténtico.

Tabla 1 Datos de alarma en los senos coxígeos

Más de una marca cutánea (angioma, hipertriosis...)
Lesión cutánea por encima del pliegue glúteo
Asimetría de glúteos
Exploración neurológica anormal
Síntomas de esfínteres
Tamaño del seno > 5 mm
Seno a > 2,5 cm del ano
Tracto ascendente del seno a la palpación

Es de destacar que la mayoría de los estudios insisten en que el seno sacrocoxígeo es inofensivo y que constituye una variante benigna de la normalidad. En varias series de senos dérmicos que incluyen 1.374 niños no se encontró ninguna relación entre estas anomalías cutáneas y espina bifida oculta^{1,3,4,7,8}. Gibson et al realizaron un estudio prospectivo de 95 neonatos (1,9% de 4.989 nacimientos): de 75 con seno sacro-coxígeo ninguno tuvo anomalías, lo que sugiere que este tipo de hoyuelo no representa un alto riesgo de EBO⁴. Weprin y Oakes tampoco encontraron relación alguna de EBO y seno sacro-coxígeo en su revisión bibliográfica³. Para la mayoría de los autores la realización de algún estudio de neuroimagen simplemente no estaría indicada⁷⁻¹⁰. Sin embargo, Kajiwara et al describen tres casos, dos con meningitis, e indican que la presencia de uno de estos senos en la región sacro-coxígea no siempre descarta la posibilidad de infección intraespinal⁵. Además en nuestra experiencia, 3 de 8 pacientes con seno dérmico auténtico también presentaban un sinus sacrocoxígeo asociado.

La **tabla 2** recoge los estudios a realizar, de manera escalonada, a los niños con seno sacrocoxígeo de acuerdo con nuestra experiencia y con una encuesta reciente a los neurocirujanos pediátricos, teniendo en cuenta consideraciones de tipo económico^{9,10}. De todas formas, en la práctica clínica y en casos de duda razonable, se puede

Tabla 2 Recomendación de estudios a realizar en niños con senos sacrocoxígeos

Tipo de exploración	Tipo de pacientes
Solo exploración clínica	Todos
Radiografías	No indicada
Ecografía	Cribado inicial, niños < 1 año
Resonancia magnética	Casos con ecografía anormal o sospechosa
Consulta a neurocirugía	Clínica, ecografía, o RM positiva o sospechosa de EBO

realizar una ecografía⁷⁻¹⁰. Esta técnica es cómoda para los niños, no requiere sedación, no supone radiación, se puede repetir, y su coste es razonable⁷⁻¹⁰. Su mayor inconveniente es que deja de ser útil a partir de los 3-6 meses por no existir entonces ventana ósea. La radiografía simple no es de utilidad porque en niños pequeños la lámina sacra no está osificada y además se acompaña de riesgos de irradiación. En casos seleccionados se puede realizar una RM de columna por su mejor definición de las estructuras de partes blandas, especialmente tras una ecografía positiva o dudosa, y como estudio de elección si se contempla la cirugía^{2,11}. La RM tiene el inconveniente de requerir sedación o anestesia y es más costosa. Los niños con senos sacrocoxígeos en los que se sospecha penetración intraraquídea deben ser remitidos con carácter de urgencia para valorar la posibilidad de intervención neuroquirúrgica. En nuestra consulta, mantenemos una política de «línea caliente» y valoramos los casos antes de que sus expedientes vengan por su vía reglamentaria. Una vez que el niño ha sido explorado, y se declara el carácter benigno de estos senos, el médico entrega un breve informe a los padres para hacerlo llegar a su pediatra, para que realice su seguimiento clínico.

Conclusiones

En resumen, la exploración del recién nacido debe incluir la inspección de la región dorsal, desde el cráneo al coxis. El seno sacro-coxígeo es un proceso casi siempre benigno que no requiere ningún estudio adicional. Se han señalado una serie de signos de alarma (**tabla 1**) que recomendarían la realización de estudios de neuroimagen: una ecografía en niños menores de 1 año, y en mayores de esta edad, o en casos dudosos o con ecografía positiva, se realizará una RM y consulta con el neurocirujano pediátrico (**tabla 2**). Estas recomendaciones están basadas en los resultados de una encuesta realizada a 62 neurocirujanos pediátricos miembros de las Sociedades Internacional y Europea de Neurocirugía Pediátrica (ISPN y ESPN)¹⁰.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Ackerman LL, Menezes AH. Spinal congenital dermal sinuses: a 30-year experience. *Pediatrics*. 2003;112:641-7.

2. Martínez-Lage JF. Médula anclada: senos dérmicos. En: Villarejo FJ, Martínez-Lage JF, editores. *Neurocirugía Pediátrica*. Madrid: Ediciones Ergon; 2001. p. 163–74.
3. Weprin BE, Oakes WJ. Coccygeal pits. *Pediatrics*. 2000;105:69.
4. Gibson PJ, Britton J, Hall DM, Hill CR. Lumbosacral skin markers and identification of occult spinal dysraphism in neonates. *Acta Paediatr*. 1995;84:208–9.
5. Kajiwara H, Matsukado Y, Hiraki YT, Yokota A. Intraspinal communication of sacrococcygeal dermal sinuses. *Childs Nerv Syst*. 1985;1:264–7.
6. Tubbs RS, Murphy RL, Kelly DR, Lott R, Salter EG, Oakes WJ. The filum terminale externum. *J Neurosurg Spine*. 2005;3:149–52.
7. Lowe LH, Johaneck AJ, Moore CW. Sonography of the neonatal spine. Part 1, normal anatomy, imaging pitfalls, and variations that may simulate disorder. *Am J Radiol*. 2007;188:733–8.
8. Schenk JP, Herweh C, Günther P, Rohrschneider W, Zieger B, Trögger J. Imaging of congenital anomalies and variations of the caudal spine and back in neonates and small infants. *Eur J Radiol*. 2006;58:3–14.
9. Medina LS, Crone K, Kuntz KM. Newborns with suspected occult spinal dysraphism: a cost-effectiveness analysis of diagnosis strategies. *Pediatrics*. 2001;108:E101.
10. Ponger P, Ben-Sira L, Ben-Adani L, Steinbok P, Constantini S. International survey on the management of skin stigmata and suspected tethered cord. *Childs Nerv Syst*. [Doi:10.1007/s00381-010-1184-0](https://doi.org/10.1007/s00381-010-1184-0).
11. Barkovich AJ, Edwards MS, Cogen PH. MR evaluation of spinal dermal sinus tracts in children. *Am J Neuroradiol*. 1991;12:123–9.