

Siringomielia y malformación de Arnold-Chiari*

Dr. Jairo Muñoz Escobar**
Dr. E. Ignacio Vergara García***

INFORME SOBRE 8 CASOS

INTRODUCCION

La existencia de cavidades patológicas en el interior de la medula espinal fue reconocida desde 1546 por ESTIENNE y mencionada ocasionalmente desde entonces por los anatomistas. Su relación con enfermedades neurológicas fue establecida en 1804 por PORTAL, y OLLIVIER D' Angers (1824) creó el término Siringomielia para designar todos los procesos cavitarios intramedulares, cualquiera que fuese su causa. SCHULTZE (1887) Y KAHLER (1888) hicieron la primera descripción de la enfermedad y desde entonces se han publicado numerosas monografías y trabajos sobre el tema: SCHLESSINGER (1902), GUILLAIN (1902), DEJERINE Y ANDRE THOMAS (1909), JONESCO - SIESTI (1932). (5).

La localización más frecuente del proceso es la zona del engrosamiento cervical, donde interesa de ordinario varios segmentos; no sobrepasa corrientemente el primer segmento cervical hacia arriba, pero puede no obstante comprometer en ocasiones la médula oblonga (singobulbital) y excepcionalmente el puente y el mesencéfalo. Hacia abajo se extiende de manera variable en la medula torácica y más raramente puede interesar la lumbar.

Desde el punto de vista etiopatogénico, aún en discusión, se distinguen tres tipos distintos de cavitaciones: 1.- Siringomielia "primaria", cavidad intramedular limitada por tejido glial, muy posiblemente congénita, producida por alteraciones en el desarrollo del tubo neural e independiente del canal ependimario, al menos inicialmente, aunque en forma secundaria pueda interesarlo y se le incorpore. 2.- Hidromielia, considerada como la persistencia y dilatación del canal ependimario medular, que se ha relacionado en forma parcial o total a cambios hidrodinámicos del LCR determinados

* Facultad de Medicina. Universidad Nacional de Colombia. Bogotá-Centro Hospitalario San Juan de Dios de Bogotá.

** Instructor Asociado de Cirugía. (Neurocirugía).

*** Profesor Asociado de Medicina. (Neurología).

por otras malformaciones congénitas y que se considera análoga a la hidrocefalia. 3.- Cavidades secundarias a otros procesos patológicos: necrosis y cavitación intratumoral, isquemia, hematomielia y trauma. En este trabajo usamos el término siringomielia para referirnos a cavidades de los tipos 1 y 2. (5 - 7 - 10 - 13)

A menudo la siringomielia se asocia a disrafias y displasias del SNC y a otros tipos de malformaciones como: Malformación de Arnold - Chiari; Síndrome de Dandy - Walker, meningomielocele, anomalías del raquis u otras partes del esqueleto, asimetría de las dos mitades del cuerpo, malformaciones genitourinarias, cardiovasculares, gástrico-intestinales, etc.

La malformación de Arnold - Chiari (1 - 5 - 10 - 11) en particular, se caracteriza por elongación y posición anormalmente baja de la parte inferior del tronco cerebral (medula oblonga y parte inferior del IV ventrículo) y de parte del cerebelo (vermis inferior y amigdalas). De tal suerte la unión bulbo-medular se encuentra desplazada hacia el canal raquídeo cervical a nivel de la 1a., 2a. y aún 3a. vértebras, con acodamiento o no de esta unión, con o sin meningocele. Secundariamente se producirá compresión de las estructuras nerviosas vecinas con o sin bloqueo del libre tránsito del LCR.

Esta entidad fue descrita en 1891 por Chiari y clasificada por el propio autor en 4 categorías: Tipo I: Desplazamiento variable de las amigdalas cerebelosas en el canal cervical superior, como única alteración. Tipo II: Desplazamiento variable del vermis inferior del cerebelo en el canal cervical, acompañado de desplazamiento caudal de la medula oblonga y parte baja del puente junto con elongación del IV ventrículo. Tipo III: Despla-

zamiento de la medula oblonga y del cerebelo dentro de meningocele cervical alto. Tipo IV: Hipoplasia de cerebelo.

Arnold reconoció que el tipo II de ésta anomalía se asociaba invariablemente a espina bifida y SCHWALBE y GREDIG (1907) le dieron el nombre de malformación de Arnold-Chiari. Se la ha descrito al igual que la siringomielia, asociada a múltiples malformaciones de SNC, del raquis o de otros aparatos y sistemas y también aparentemente aislada, sin ninguna anomalía de la unión craneocervical.

Pese a que en la literatura abundan los trabajos sobre siringomielia y malformación de Arnold-Chiari, independientes o asociados, no hemos encontrado publicaciones al respecto en Colombia. Debemos destacar sin embargo la colaboración de J. ANGEL de Colombia, en los trabajos de GARDNER, de Cleveland, sobre mecanismo de la siringomielia y atresia del foramen de Magendie, malformación de Arnold-Chiari y síndrome de Dandy-Walker. (8 - 9).

Por esta razón nos parece de interés presentar nuestra experiencia en 8 casos de siringomielia, dos de ellos asociados a malformación de Arnold-Chiari, estudiados en las Unidades de Neurología y Neurocirugía del Centro Hospitalario San Juan de Dios de Bogotá, Facultad de Medicina de la Universidad Nacional.

MATERIAL Y METODOS

Se revisan y analizan las historias de 8 casos de siringomielia, dos de ellos asociados a malformación de Arnold-Chiari. Uno fue estudiado en 1959 y los restantes entre 1966 y 1970. Cinco de ellos fueron investigados personalmente por nosotros. No incluimos en ésta revisión otros dos casos de malformación de Arnold-

Chiari sin siringomielia asociada.

Las edades de éstos pacientes variaron entre 10 y 32 años, cuatro correspondieron al sexo masculino y 4 al femenino. En todos la enfermedad se presentó en forma crónica, variando el tiempo de evolución de los síntomas desde su iniciación hasta la primera consulta entre 2 meses y 6 años; en 6 casos fue de un año o más.

CASUÍSTICA:

CASO N° 1

H.C. N° 170956- (Res. N° 1/59). L. O. Mujer de 10 años de edad, estudiante, natural y procedente de Risaralda, ingresa al Hospital el 24 de Junio/58 por paraplejia y diparesia superior de predominio izquierdo, atrofias musculares, trastornos sensitivos, incontinencia de esfínteres. La enfermedad se inició un año antes por fiebre, dolor abdominal, diarrea y vómito, dolor cervical bajo y torácico alto, paraplejia flaccida de curso rápidamente progresivo, acompañada de disminución de la sensibilidad en miembros inferiores; monoparesia superior izquierda seguida de monoparesia superior derecha en menor grado y trastornos de la sensibilidad en ambos miembros superiores. Incontinencia de esfínteres y escaras.

El examen clínico comprobó los datos anteriores y la exploración de la sensibilidad reveló hipoalgésia desde el Dermatoma C-4 y parches de anestesia térmica, tactil y profunda sin sistematización. Desnutrición y anemia. El diagnóstico inicial fue de Compresión medular a nivel C-4, por probable absceso epidural. Las Radiografías simples de columna cervical mostraron ensanchamiento del canal raquídeo desde C-3 hasta T-2 con un máximo diámetro transverso (iter-pedicular) de 32 mm. a nivel C-4. Una punción lumbar practicada en Diciembre/58 mostró

presión baja (4 cm.H20) y signos de bloqueo manométrico; el LCR. mostró elevación de proteínas (315 mgs%). La mielografía aunque técnicamente deficiente, mostró bloqueo parcial en T-1, aumento del diámetro transverso de la columna opaca a nivel del engrosamiento cervical.

Con diagnóstico preoperatorio de Lesión intrínseca de la medula, se practicó en Febrero 25/59 Laminectomía exploradora a nivel C-6 comprobándose la presencia de un quiste siringomielico. En el post-operatorio tras una ligera mejoría inicial, empeoró lentamente. La paciente falleció en Junio 2/59 en estado de desnutrición severa, anemia, e hipoproteinemia, deshidratación y edema pulmonar.

CASO N° 2

H.C.N° 411568. (Res. 239/66). H. C. Agricultor de 32 años natural y procedente de Nobsa (Boyacá) admitido al Hospital en Octubre 20/66 por presentar atrofias musculares de miembros superiores y debilidad para la prehensión. La enfermedad se inició 4 años antes por un traumatismo en el codo derecho, seguido de artritis séptica y anquilosis. Desde entonces presenta atrofia progresiva de la musculatura intrínseca y extrínseca de la mano; iguales signos se presentaron en la mano izquierda dos años más tarde con imposibilidad para la prehensión. 18 años antes se había practicado corrección parcial de labio leprino complicado, e informó que un hermano presenta igual malformación.

Al examen se encontró: Labio leporino (corregido), paladar hendido, úvula bilobulada, anquilosis del codo derecho en extensión, pronación y angulación anormal del antebrazo derecho en el tercio

superior; voz nasal.

Asimetría facial por hemiatrofia derecha, asimetría de las fosas nasales. Ptosis palpebral derecha, surco nasogeniano derecho menos marcado, atrofia del trapecio derecho, desviación de la lengua hacia la izquierda al protruir; escoliosis cervico-toracica de convejidad derecha. Debilidad de las manos con atrofia de músculos intrínsecos y extrínsecos, (mano de predicador). Abolición de reflejos en miembros superiores. El examen de sensibilidad mostró: Termo-analgésia desde un nivel T-3 a la izquierda y C-6 a la derecha; tacto sin datos. Profunda normal.

Las radiografías simples de columna cervico-toracica mostraron escoliosis y ensanchamiento del canal raquídeo con distancia inter-pedicular de 28 mm. en C-6-7 y T1; el diámetro sagital fué de 21 mm. a nivel C-4 y 22 mm. a nivel C-6-7. El estudio mielográfico mostró ensanchamiento del diámetro transverso de la columna opaca, principalmente a nivel C-7. Un EMG previo a su hospitalización, mostró lesión difusa de NMP. En Noviembre 15, salió del Hospital por solicitud propia y no volvió a consulta.

CASO Nº 3.

H.C.Nº 446701. (Res. 5/67 -O.S.). I.P.R.
Mujer de 19 años, estudiante, natural de Ibagué, admitida en Enero 12/67, por parálisis y anestesia de los miembros inferiores de dos años de evolución. Se inició en 1965 por pesantez y parestesias en miembro inferior derecho y consecuentes trastornos de la marcha. El mismo fenómeno se observó 9 meses después en el miembro inferior izquierdo, acompañado de retención urinaria. Estudiada fuera del Hospital (Dr. Juan Trujillo en 1966), fue

sometida a intervención quirúrgica: La-minectomía T3-4-5 y drenaje de un extenso quiste Siringomielico, que dió imagen mielográfica y manómetrica de bloqueo completo a ese nivel. En Diciembre del mismo año presentó dolor cervical y parestesias en miembro superior izquierdo. Ingresó al Hospital para tratamiento de espasticidad. Al examen de ingreso se encontró: paraplejia espástica en flexión exaltación de los reflejos tendino-musculares en miembros inferiores y depresión en los superiores, Babinski bilateral, y signos de automatismo medular. Hipoalgesia e hipoestesia desde un nivel correspondiente a T4. Abolición de la sensibilidad profunda en miembros inferiores. No había control de esfinteres. Vejiga neurológica espástica.

Las radiografías simples de columna cervical mostraron ensanchamiento del canal raquídeo con distancia interpedicular de 29 mm. en C-6 y 30 mm. en C-7; diámetro sagital 21 mm. en C-6, y 22 mm. en C-7. Roto-escoliosis dorso lumbar y curva compensadora toracica alta. El estudio mielográfico con contraste positivo, mostró bloqueo en T-4. No tiene estudio a nivel cervical. Se le practicaron alcoholizaciones sub-aracnoideas para corrección de espasticidad, para lo cual ingresó, y se le dió salida el 23 de Enero de 1967. Permanencia en el Hospital: 9 días.

CASO Nº 4

H.C.Nº 475685. (Res. No. 117/67).
J. C. I. Agricultor de 27 años, natural y procedente de Nobsa. Admitido por primera vez en el Hospital, el 27 de Junio/67 por disminución de la fuerza en MMSS de predominio distal, atrofias musculares en las manos, dolores en miembros superiores y en menor grado en región glutea y miembros inferiores. Su padecimiento se inició dos meses antes por disminución

de fuerza en la mano izquierda, atrofia progresiva de músculos de la mano y dolores "tipo picada" en todo el miembro superior izquierdo y mitad homolateral de la cara. Quince días más tarde, igual sintomatología en miembro superior derecho y pocos días antes del ingreso debilidad en miembros inferiores y dolor sacro irradiado a la cara posterior de los mismos, acompañado de adormecimiento y fasciculaciones.

Tiene antecedentes de TBC pulmonar tratada en 1960 y paludismo. Al examen de ingreso se encontró: dolor a la presión y percusión de apofisis espinosas de C4-5-6, L-1 y L-2- Discreta limitación de la flexión de la cabeza, debilidad y atrofias musculares de las manos (especialmente eminencia hipotenar y músculos interósos), mano simiana; debilidad de antebrazos, brazos y del hombro izquierdo, fasciculaciones en manos y antebrazos; debilidad de menor grado en miembros inferiores, con dolores radiculares y sensación de "adormecimiento". Reflejos tendino-musculares abolidos en miembros superiores y normales en los inferiores, excepto el rotuliano izquierdo que se encontró exaltado. Abdominales abolidos. Sensibilidad: Hipo-algesia e Hipoestesia (dolor tacto) desde C5, más marcada a la izquierda y a veces "corrientazos" a leves estímulos dolorosos. Profunda conservada. El EMG. mostró denervación de C7-8-T1. El estudio radiológico simple mostró ensanchamiento del canal raquídeo, con diámetros transversos (interpediculares), de 24 - 24 - 28, 25 mm. a nivel C5-6-7-T1 respectivamente y diámetros sagitales de 19 mm. a nivel C7, T1.

Se encontró bloqueo parcial a la manometría y las proteinas del LCR fueron de 44 mm. El estudio mielográfico con contraste positivo evidenció ensanchamiento de la columna opaca a nivel C5-

6 - 7, T - 1. (Fig. N° 1).

En Junio/67, le fue practicada Laminectomía C5-7 y drenaje simple de quiste siringomielico Recibió fisioterapia post-operatoria y 25 días después de su ingreso fue dado de alta sin ninguna mejoría: las parestesias de miembros superiores e inferiores y el dolor lumbar aumentaron. Ingresó por segunda vez el 29 de Octubre /68 con la misma sintomatología, pero ahora con cuadriparexia de predominio superior; arreflexia en miembros superiores e hiperreflexia en los inferiores. A las alteraciones sensitivas iniciales se sumó en esta ocasión Lasegue derecho-a 45°. Una nueva mielografía no mostró bloqueo, pero si ensanchamiento de la imagen medular a nivel C5-6-7- y la química del LCR mostró: Proteinas 44 mgr. Glucosa 54 mgr. Cloruros 649, sin células. El 14 de Noviembre/68 se practicó re-exploración de la laminectomía, encontrando reproducción del quiste intramedular. Se dejó esta vez drenaje permanente con tubo de polietileno. Análisis del líquido del quiste: Proteinas 64 mgr. Glucosa 435 mgr. Leucocitos: 47 por mm³ Linfocitos 70% - Neutrofilos 30% (Líquido hemorrágico).

En el Post-operatorio inmediato se acentuó la cuadriparexia que mejoró después en forma considerable; los dolores radiculares desaparecieron pero persistió la hipo-algesia en dermatoma C-5-6-7. El 4 de Diciembre/68 salió del Hospital (Permanencia 35 días) y ha recibido fisioterapia en forma discontinua. Los controles posteriores han mostrado discreta mejoría de su sintomatología.

CASO N° 5

H.C. N° 508183. (Res. N° 177/68 O.S.). J.S. Hombre de 22 años, natural de Ipiales, procedente de Bogotá, estudiante.

Ingresó al Hospital el 11 de Julio/68 por dolor dorso-lumbar y trastornos de la sensibilidad en hemicuerpo derecho. Seis años atrás se inició su enfermedad después de traumatismo directo en región escapular derecha, por adormecimiento de hemitórax derecho y miembro inferior homolateral. Tres años después sensación de quemadura de igual distribución y desviación progresiva de la columna toracica. Al examen de ingreso se encontró: Asimetría toracica, escoliosis de convejidad derecha con vértice en T8; hipoestesia, hipoalgesia en dermatomas correspondientes a T5-6-7-8-9-10 y 11 sin trastorno motor alguno. La exploración de los reflejos fue normal, y el EMG fue igualmente normal. El estudio radiológico simple de la columna evidenció escoliosis toracica con centro en T8 y curvas compensadoras. La distancia interpedicular (diámetro transverso) fue de 34-35-32 y 26 mm. a nivel C-6-7-T1-T2 respectivamente, y el diámetro sagital fue de 23-23-22-21 mm. respectivamente. La manometría no mostró bloqueo y las proteinas del LCR. fueron de 50mgr. con Pandy +. La mielografía mostró aumento considerable del diámetro medular trasverso (34 mm) a nivel C7. Con diagnóstico de quiste siringomielico, se practicó Laminectomia C6-7 y drenaje permanente del quiste mediante tubo de polietileno P.E. 50. El post-operatorio fue normal, con mejoría de los trastornos sensitivos. Sa-lió del Hospital en Agosto 10/68 (Permanencia 30 días) y no ha vuelto a controles.

CASO Nº 6

H.C. Nº 5444176. (Res. Nº 200/69. O.S.) E.B. Mujer de 26 años. Natural de Riohacha. Procedente de Bogotá. Ingresó al Hospital en Agosto 6/69 por parálisis de mano y antebrazo izquierdos y paresia del miembro superior derecho; anestesia variable en ambos y "calambres" en el

izquierdo y región lateral izquierda de cuello. Atrofias musculares. Padecimiento de evolución lentamente progresiva, se inició cinco años antes por compromiso motor y sensitivo descritos, en miembro superior izquierdo, que hace un año comprometió también el miembro superior derecho, y atrofias musculares.

Al examen de ingreso se encontró: xifo-escoliosis toracica de convejidad izquierda, exageración de la lordosis cervical, diparesia superior de predominio distal y más notoria en el miembro superior izquierdo, flacidez marcada en MSI y en menor grado en el derecho, atrofia muscular generalizada en miembros superiores pero más evidente en el izquierdo, con abolición de los reflejos tendinomusculares y atrofias del músculo pectoral izquierdo. La exploración de la sensibilidad mostró anestesia para todos los estímulos (superficiales y profundos) en MSI y región lateral izquierda del cuello desde C-3. El compromiso de la sensibilidad en el MSD fue menor pero de igual distribución metamérica.

El diagnóstico inicial fue de compresión radicular C-4-T2 con discreta lateralización izquierda por probable lesión expansiva extramedular o Siringomelia (?). El EMG. fue compatible con lesión radicular en ambos miembros superiores en niveles C5 a T1. El estudio del LCR. mostró proteinas de 39 mgr. con Pandy + y 10 leucocitos x mm³. No se encontró bloqueo. La radiografía simple de la columna cervico-toracica mostró xifo-escoliosis toracica de convejidad izquierda y aumento considerable de la lordosis cervical, ensanchamiento del canal raquídeo con diámetros transversos de 26-29-30 y 26 mm. a nivel C5-6-7 y T1 respectivamente, y diámetros sagitales de 18-18-21 y 18 mm. a los mismos niveles. La mielografía mostró aumento del diá-

metro transverso de la columna opaca a nivel C5-T1. compatible con siringomielia. Con este diagnóstico, se practicó el día 20 de Agosto/69 Laminectomía C5-6-7-T1. y drenaje permanente del quiste con tubo de polietileno P.E. 50. El postoperatorio inmediato fue normal, con discreta mejoría de los síntomas, recibió fisioterapia y salió del Hospital el día 12 de Septiembre/ 69 (Permanencia: 36 días). Reingresó el 18 de Octubre/69 por parálisis del MSI tres días antes, consecutiva a dos traumatismos leves en hombro y cráneo. El cuadro clínico no había sufrido modificaciones sustanciales, excepto lo relacionado con la motilidad en MSI, y las radiografías dinámicas de la columna cervical mostraron aumento de la lordosis y angulación en C6-7 y laminectomía. Una punción lumbar no mostró bloqueo y una nueva mielografía mostró aumento de menor grado en el diámetro transverso de la medula. Se aplicó collar de Thomas y fue sometida a fisioterapia con lo cual mejoró discretamente el compromiso motor del MSI. Nuevamente se le dió de alta, el día 2 de Noviembre. (Permanencia: 17 días). No ha vuelto a controles.

CASO Nº 7

H.C. Nº 550255. (Res. 187/69. O.S.). L.F.P. Mujer de 26 años, natural de Cumbal (N), procedente de Bogotá. Empleada. Ingresó al Hospital el 28 de Agosto/69 por debilidad y atrofia de miembro superior derecho, trastornos de la deglución y de la fonación. Su enfermedad se inició dos años atrás por debilidad en miembro superior derecho, más en la mano, parestesia en los mismos y en mitad derecha de la cara, de curso progresivo en 6 meses, al cabo de los cuales aparece atrofia muscular en mano derecha y déficit sensitivo (termo-analgésia: se quemaba) aunque conservaba el tacto. Recibió fisioterapia durante año y medio, con mejoría discreta de la motilidad pero no

de la sensibilidad. Siete meses antes del ingreso presenta disfonía, voz bitonal, disfagia para líquidos con regurgitación por la nariz. En los meses anteriores a su hospitalización aparece diplopia al mirar al frente y a la izquierda, parestesias en hemitorax izquierdo y claudicación del miembro inferior derecho durante la marcha. Al examen se encontró marcadíscoliosis dorsal dextro conveja, con curvas compensatorias cervical y lumbar; cuello corto con dolor a la movilización. Presenta paresia de VI par izquierdo, nistagmus rotatorio espontáneo. Hipo-algesia (dolor y temperatura) en hemi-cara derecha y cuero cabelludo en territorio de V par, paresia de la mitad derecha del velo del paladar, reflejo faringeo disminuido en lado derecho, disfonía, disfagia, debilidad de la mitad derecha de la lengua con fasciculaciones. Síndrome de Horner derecho. Sistema Motor: Hemiparesia derecha de predominio superior y distal con atrofias de musculatura intrínseca y extrínseca y aspecto de mano siminana, fasciculaciones en antebrazo y mano. En menor grado presentaba paresia del miembro superior izquierdo. Las alteraciones de sensibilidad consistían en anestesia para dolor y temperatura (termo-analgésia) en los dermatomas C2 a T6 derechos, con hipoestesia táctil en el mismo territorio. La propiocepción y la estereognosia estaban alteradas en la mano derecha.

El diagnóstico inicial fue de lesión intrínseca medular a nivel C-2 a T-1 con extensión bulbar y se sospechó la posibilidad de siringomielia o de tumor intrínseco.

Las radiografías simples de cráneo y columna cervical mostraron progresión de la escama del occipital hacia adelante. La punta de la odontoide estaba 10 mm. por encima de las líneas de Chamberlain y bimastoidea; presentaba xifo-escolio-

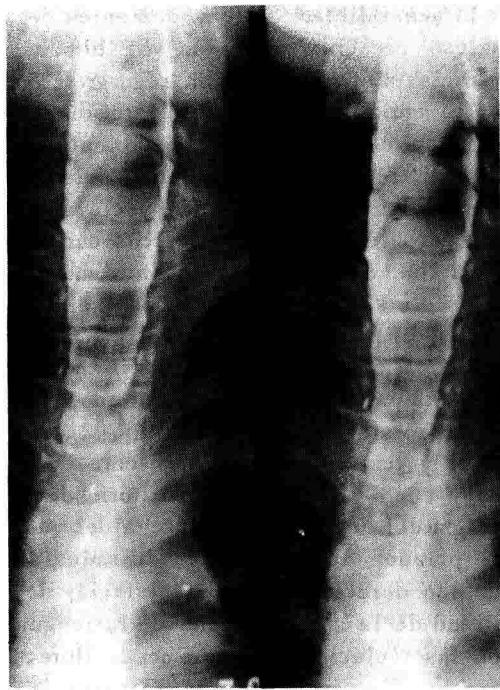


FIGURA N° 1

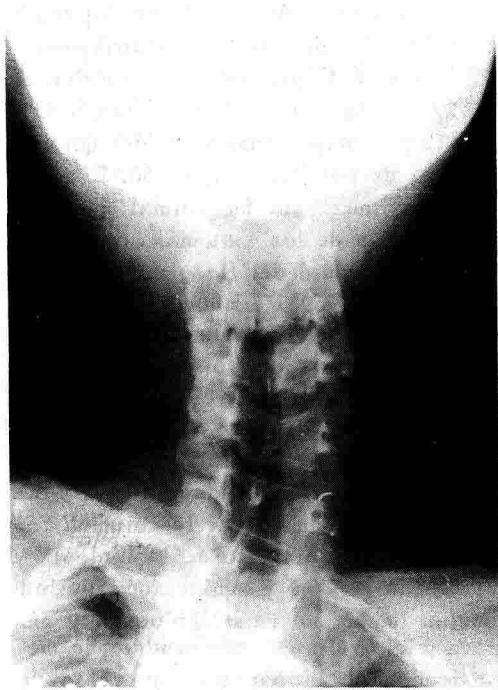


FIGURA N° 2

FIG. 1. CASO 4. Mielografía cervical, vista posteroanterior. Muestra el ensanchamiento de la médula cervical a nivel C-5 a T-1; se aprecia igualmente el aumento de la distancia interpedicular en los mismos niveles. La exploración quirúrgica demostró la presencia del quiste siringomiélico cervical.

FIG. 2. CASO 7. Radiografía simple de columna cervical, vista anteroposterior. Muestra el ensanchamiento del canal raquídeo a nivel del quiste siringomiélico, determinado por el aumento de la distancia interpedicular entre C-4 y T-2.

sis torácica dextroconveja. Se encontró ensanchamiento del canal raquídeo a nivel cervical, con distancias interpediculares de 26 mm. a nivel C-4, 28 mm. en C-5, 29 mm. en C-6, 27 mm. en C-7, 26 mm. en T-1 y 24 mm. en T-2.; el diámetro sagital estaba igualmente aumentado: 22 mm. en C-4, y C-5, 25 mm. en C-6, 23 mm. en C-7. El estudio mielográfico mostró aumento del diámetro transverso de la medula a nivel de los segmentos cervicales y defecto posterior de la columna de medio opaco a nivel de la unión craneo-cervical. Un Neumo-encefalograma de fosa posterior no mostró llenamiento de esas estructuras. (Figs. N°s. 2 y 3).

El LCR. fue normal. Un EMG. mostró lesión en NMP con distribución radicular en miembro superior derecho.

Con el diagnóstico de siringomielia (C-1 a T-3) y sospecha de malformación de Arnold-Chiari y de invaginación basilar se practicó craniectomía suboccipital decompresiva y Laminectomía de C-1 a T-1. Se practicó drenaje de un gran quiste siringomielico, dejando derivación con tubos de polietileno con alma de seda, intraquísticos en C-3 y T-1. No había evidencia de siringobulbia y se evidenció malformación de Arnold-Chiari con descenso de las amigdalas cerebelosas 1 cmt. por debajo de C-1. En el Post-operatorio inmediato presentó parestesias en miembros inferiores, moderada cuadriparese espástica con hiperreflexia marcada y fenómenos de automatismo medular. No podía deglutir por lo cual requirió gastroclisis. En las semanas siguientes, se inició mejoría de los signos y síntomas neurológicos en forma constante, recibe tratamiento de Rehabilitación, vuelve a deambular y sale del hospital en Octubre 16/69 para continuar tratamiento ambulatorio hasta la fecha. Hay marcada mejoría de la fuerza muscular

persistiendo las atrofias, mejoría de la sensibilidad, no ha perdido la estabilidad de la columna, no usa collar, y las alteraciones de los pares craneanos han regresado excepto el nistagmus. (Fig. N° 5).

CASO N° 8

H.C.N° 566571. (Res. 53/70). M. A. F. Hombre de 15 años, natural y procedente de Chiquinquirá, estudiante que ingresa en Marzo 31/70 por disminución de fuerza en los MMSS y luego en los inferiores, de curso lento y progresivo de 8 meses de evolución y simultáneamente discreto dolor retro-auricular derecho frecuente. En los últimos 6 meses ha presentado dificultad para la marcha por falta de control del miembro inferior derecho y diplopia a la mirada de la derecha. Además presenta deformación de los pies (pie cavo) desde la iniciación de la enfermedad.

Al examen se encontró xifo-escoliosis torácica, asimetría del tórax por mayor desarrollo del hemitórax derecho, pie cavo-equino bilateral con artejos en martillo. La cabeza la mantiene en posición anormal, inclinada a la derecha y rotada a la izquierda.

Al examen de pares se encontró nistagmus espontáneo horizontal de componente rápido a la derecha y rotatorio provocado por los movimientos oculares; en ocasiones nistagmus vertical. Diplopia al mirar a la derecha y la imagen falsa correspondiente a debilidad del oblicuo menor. Presentaba hipo-estesia de la mitad derecha de la cara. En el sistema motor se encontró hemiparesia derecha discreta de predominio superior con atrofias musculares de predominio distal tanto superior como inferior, además hipertonia e hiperreflexia bilateral con clonus rotuliano bilateral,

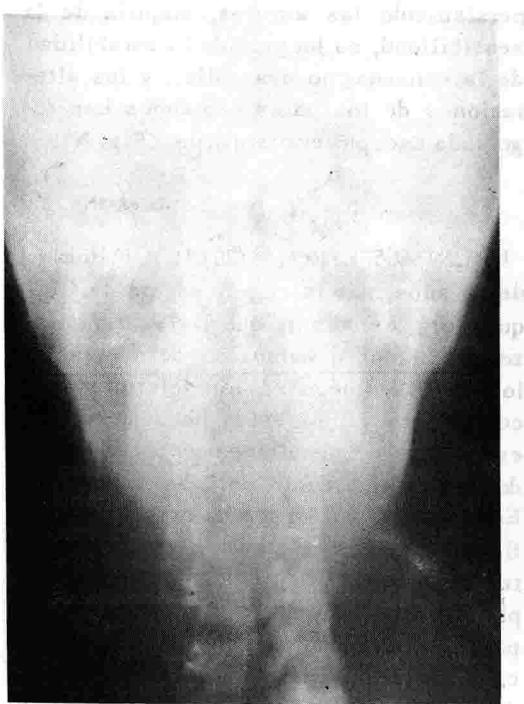


FIGURA N° 3

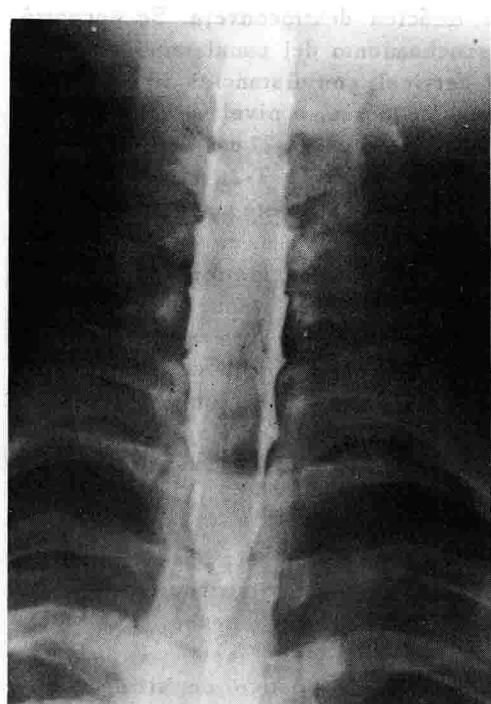


FIGURA N° 4

FIG. 3. CASO 7. Tomograma anteroposterior de la odontoides y columna cervical, que demuestra la invaginación basilar (el extremo superior de la odontoides está 10 mm. por encima de la línea bimastóidea) y el aumento del diámetro transverso del canal raquídeo.

FIG. 4. CASO 8. Mielografía cervical, vista posteroanterior. Se aprecia el ensanchamiento del canal raquídeo por expansión de la médula cervical de C-3 a T-2 por un gran quiste siringomiélico.

Hoffman bilateral y reflejos plantares en flexión. El examen de sensibilidad mostró anestesia para dolor y temperatura (termo-anestesia) en la mitad derecha del cuello (desde el dermatoma C-2), miembro superior derecho y hemitórax derecho hasta el dermatoma T-6. En el lado izquierdo presentaba termo-analgésia en los dermatomas T-6 a T-12. El sentido de posición y la sensibilidad vibratoria estaban disminuidos en los miembros superiores sin sistematización.

Además presentaba alteraciones de la coordinación como dismetría en los miembros izquierdos, adiadocosianesia bilateral, marcha inestable con desviación a la derecha y Romberg sensibilizado con tendencia a caer a la derecha.

Las radiografías de la columna cervical mostraron ensanchamiento del canal raquídeo con distancia interpedicular de 30 mm. a nivel C-5 y C-6, 35 mm. a nivel T-1. R.X. de cráneo, EEG., Audiograma y exámenes de laboratorio fueron normales, lo mismo que el LCR. El estudio mielográfico no evidenció bloqueo, pero demostró ensanchamiento de la columna opaca entre los segmentos T-2 a C-3. Una Neumo-mielografía mostró detención del aire en el espacio subaracnoideo raquídeo a nivel C-2 y luego llena todos los espacios subaracnoideos craneanos pero sin obtenerse llenamiento de IV ventrículo ni del resto del sistema ventricular. Con el diagnóstico de siringomielia y posible malformación de Arnold-Chiari se llevó a cirugía y se practicó craniectomía occipital decompresiva con resección del arco posterior del Atlas y del Axis y laminectomía C-7 a T-1. Se encontró un quiste siringomielico que se evacuó y se dejó un drenaje permanente a nivel T-1 con un tubo de caucho siliconizado y seda intra-canalicular. A nivel de la unión craneo-cervical se evidenció la malformación de

Arnold-Chiari. En el post-operatorio inmediato presentó estado febril de causa no clara y posteriormente infección quirúrgica (estafilococo, coagulasa positiva) que cedió facilmente con antibióticos (ampicilina). Hasta el momento viene recuperandose satisfactoriamente de sus síntomas y signos neurológicos con remisión de signos motores y cerebelosos, persistiendo las atrofias; en menor grado han regresado las alteraciones de sensibilidad y persiste el nistagmus. Actualmente continúa su tratamiento ambulatorio. (Figs. N°s. 4, 6, 7 y 8).

ASPECTO CLINICO

Las manifestaciones clínicas fueron variadas y las pudimos sistematizar en cuatro categorias:

a) Cuadro clásico de déficit disociado de sensibilidad a nivel segmentario cervicio-torácico, asociado a compromiso motor igualmente segmentario (NMP) en miembros superiores (amiotrofias tipo Aran-Duchenne) en 3 casos (Nº 2-7-8). Igualmente estos tres casos presentaban compromiso de pares craneanos (III-VI-IX-X y XII) y uno de ellos además síndrome de Horner unilateral (caso Nº 7) y dos, signos vestíbulo-cerebelosos.

En los casos 7 y 8 se demostró la asociación de malformación de A-C y siringomielia tanto por los estudios radiológicos como durante el procedimiento-operatorio. En el Nº 2 se demostró la siringomielia radiológicamente y se sospechó la malformación de A-C por las alteraciones de pares craneanos. No fue intervenido. Un caso (Nº 7) presentaba además impresión basilar.

b) Síndrome de déficit sensitivo segmentario no disociado total a nivel cervical, con signos de compromiso radicular unilateral y asociado a alteraciones de motilidad de tipo igualmente segmenta-

rio, un caso (Nº 6).

c) Síndrome de déficit sensitivo segmentario no disociado a nivel torácico, con compromiso radicular y sin alteraciones de sensibilidad, un caso (Nº 5).

d) Síndrome de lesión medular transversa a nivel cervical (sensitivo-motor, segmentario y vías largas), en tres casos (Nº 1-3-4). Uno presentaba signos de irritación radicular.

Se observaron además otras malformaciones, congénitas o adquiridas en 6 casos, siendo la más común la presencia de alteración de las curvaturas normales de la columna (cifo-escoliosis dorsal, acentuación de la lordosis cervical y curvas compensatorias). Además, un caso (Nº 2) presentaba labio leporino, paladar hendido y hemiatrofia facial y otro (Nº 8) pie cavo equino bilateral y paladar ojival. Solamente en un paciente existía historia familiar de malformaciones congénitas (Nº 2).

En consecuencia, el diagnóstico clínico inicial fue de compresión medular en 6 casos, pero en dos de ellos también se sospechó Siringomielia. En cinco se sospechó Siringomielia o tumor centro medular, en uno Siringobulbina, y en tres malformación de Arnold-Chiari.

PROCEDIMIENTOS DIAGNOSTICOS

a) Radiología Simple. En todos los casos se practicaron estudios radiológicos simples de columna, que demostraron tres tipos de alteraciones: 1). Alteración de las curvas normales de la columna vertebral: escoliosis, xifoescoliosis y exageración de la lordosis cervical, presente en seis casos (Nº 2,3,5,6,7 y 8). 2). Enanchamiento del canal raquídeo en sus diámetros transverso y sagital relacionado

con la localización del quiste. Tomando como base los valores normales de las medidas interpediculares en el adulto establecidos por ELSBERG y DYKE (1935) y las cifras de los diámetros sagitales establecidas por WOLFE y Col. (1956), (6-17) encontramos que en dos de nuestros casos (Nº 5 y 8) el diámetro transverso sobrepasa el límite superior ordinario y en los restantes estaba muy cerca de él; en cambio el diámetro sagital se encontró siempre por encima del promedio (17 mm. entre C-4 a C-7) y en tres casos (Nº 5,7 y 8) sobrepasó la cifra máxima (22 mm. a estos mismos niveles). Cuadros 1 y 2.

CUADRO Nº 1
PEDICULOMETRIA - DIAMETROS TRANSVERSES

CASO Nº	DIAMETRO TRANSVER- SO MAXIMO	NIVEL	VALOR PROME- DIO NORMAL. LI- MITE SUPERIOR (Elsberg y Dyke).
1	32 mm.	C-4	32 mm.
2	29	C-6-7	32
3	30	C-7	31
4	28	C-7	31
5	35	C-7	31
6	30	C-7	31
7	29	C-6	32
8	35	C-7	31

CUADRO Nº 2
DIAMETRO SAGITAL

CASO Nº	MAXIMO DIAM.	NIVEL	VALORES NORM.(WOLFE y COL)
			MIN. MED. MAX.
1	18 mm.	C-4	12 mm. 17 22 mm.
2	22	C-6-7	12 17 22
3	22	C-7	12 17 22
4	19	C-7	12 17 22
5	23	C-7	12 17 22
6	21	C-7	12 17 22
7	25	C-7	12 17 22
8	27	C-7	12 17 22

3). En uno de los casos (Nº 7) se encontró impresión basilar; el extremo superior de la odontoides se encontraba 10 mm. por encima de la línea de Chamberlain y de la bimastoidea y además el borde posterior del agujero magno se proyectaba

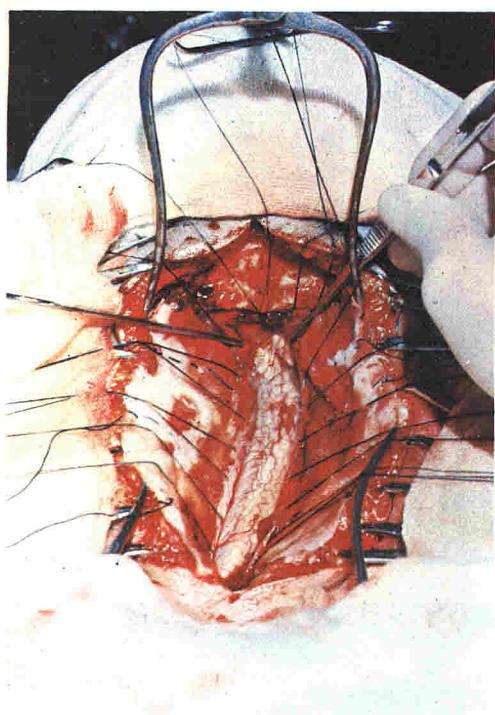


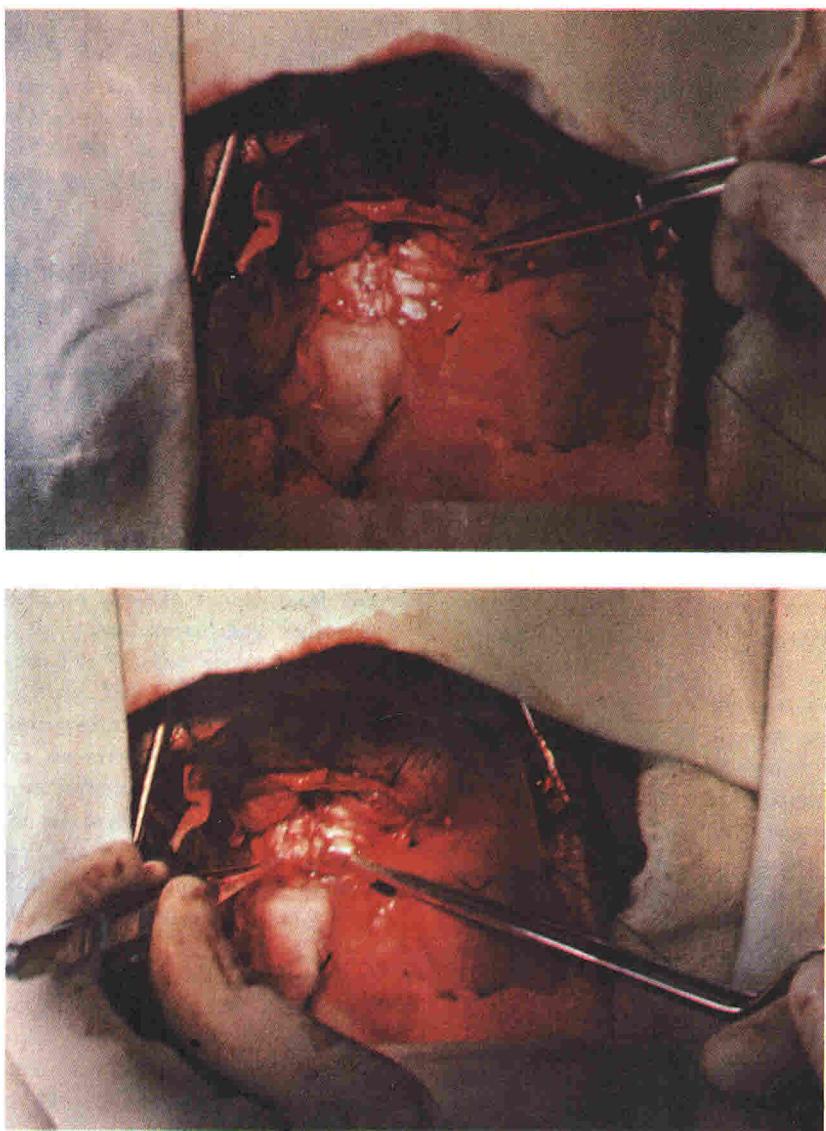
FIGURA N° 5



FIGURA N° 6

FIG. 5. CASO 7. Vista del campo operatorio: craniectomía suboccipital decompresiva y laminectomía de C-1 a T-1. Las amígdalas cerebelosas se proyectan en el canal raquídeo y descienden por debajo del nivel del arco posterior del Atlas que ha sido removido (señalado por la pinza). Se aprecia el gran quiste siringomiélico que se extiende desde C-1 a T-1 y la congestión vascular en la superficie de la médula.

FIG. 6. CASO 8. Vista del campo operatorio: laminectomía C-7, T-1, la duramadre está separada y la médula ensanchada por el quiste siringomiélico está expuesta, apreciándose la congestión vascular. En el extremo inferior del quiste se encuentra en posición el tubo de caucho siliconizado con seda intracanalicular que se dejó como drenaje permanente.



FIGURAS N°s. 7 y 8

FIGS. 7 Y 8. CASO 8. Vista del campo operatorio: craniectomía suboccipital decompre-
siva y laminectomía C-1 a C-2 se evidencia la protrución en el canal cervical de las amig-
dalas cerebelosas (malformación de Arnold-Chiari).

hacia adelante.

Respecto a las cifras de pediculometria de Elsberg y Dyke, determinadas sobre grupos étnicos diferentes a los nuestros, probablemente son mayores que los los que pudieran encontrarse en nuestro medio.

b) Estudios Radiológicos de Contraste. Mielografía: Se practicó en todos los casos estudio mielográfico con contraste positivo (iodado). De acuerdo con el criterio de TAVERAS y WOOD (1964) (17) el diámetro transverso de la medula se encontró por encima del valor promedio normal en 7 de nuestros casos (aproximadamente la mitad de la distancia interpedicular en todos los niveles excepto en C-5 donde la medula ocupa casi los dos tercios del canal vertebral). Solamente en un caso (Nº 3), que presentaba bloqueo a nivel de T-4 y al cual no se le practicó mielografía cervical, el diagnóstico positivo de siringomielia se hizo durante el acto operatorio. En dos casos Nº 7 y 8) la mielografía asociada al estudio de aire (Mielografía gaseosa y NEG) permitió establecer el diagnóstico de malformación de Arnold-Chiari. (1-14).

c). LCR. Se demostró bloqueo parcial manométrico en dos casos (Nº 1 y 4), total en uno (Nº 3) y no hubo bloqueo en los restantes. En los casos en que se consignó el dato del análisis cito-químico del LCR. (Nºs 1-4-5-6-7 y 8) se observó ligero aumento de proteinas en cinco (Nº 4-5-6-7-8) y solamente en uno (Nº 1) una determinación de proteinas fue de 315 mg.

d). Electro-diagnóstico: se practicaron estudios Electro-miográficos en 6 pacientes (Nº 2,4,5,6,7,8) que demostraron evidencia de lesión de NMP a nivel de los segmentos comprometidos en 4 (Nº 4,6,7,8) y en uno lesión difusa de NMP (Nº 2);

solamente en un caso (Nº 5) el EMG. fue normal.

TRATAMIENTO

Siete de los pacientes fueron sometidos a tratamiento quirúrgico, laminectomía, que permitió demostrar la presencia del quiste. En dos de ellos a quienes se practicó además craniectomía occipital decompresiva, se demostró la presencia de Malformación de Arnold-Chiari asociada (casos Nº 7 y 8).

Las técnicas operatorias empleadas fueron las siguientes:

- 1.- Laminectomía decompresiva simple (caso Nº 1) en un caso.
- 2.- Laminectomía y evacuación del quiste por punción y aspiración de su contenido en dos (Nº 3 y primera intervención del Nº 4).
- 3.- Laminectomía y mielotomía, con drenaje permanente del quiste al espacio subaracnoideo mediante cateter (polietileno o caucho siliconizado) en 5 casos (Nº 5,6,7,8 y segunda intervención del Nº 4). En los casos 7 y 8, se incorporó a la luz del cateter hilos de seda anudados en su extremo superior. Los implantes se fijaron a la duramadre en la vecindad de su extremo inferior.
- 4.- Craniectomía occipital decompresiva en dos casos (Nº 7 y 8) para tratamiento de la malformación de Arnold-Chiari asociada. No se resecaron las amigdalas cerebelosas, pero se liberaron adherencias en el IV ventrículo y la duramadre no se suturó. En ninguno de estos casos se presentó fistula de LCR. En uno de éstos (Nº 7) se utilizó la técnica de ABOULKER de extensa laminectomía C-1 a T-1 inclusive, con excelente resultado y sin observarse alteraciones de la estabilidad de la

columna 11 meses después.

En ninguno de estos casos se utilizó la radioterapia y todos recibieron tratamiento de rehabilitación física.

RESULTADOS

Una paciente presentó ligera mejoría inicial, luego de decompresión simple (Nº 1) y posteriormente recayó y murió 4 meses más tarde; es el único caso de mortalidad de esta serie.

Otro de los pacientes (Nº 2), salió del hospital voluntariamente, no fue intervenido y no volvió a controlarse.

El tercer paciente (Nº 3), a quien se drenó un quiste torácico, no mostró ninguna mejoría y quedó la sospecha de un quiste cervical que no se drenó y probablemente independiente.

Los cinco restantes mostraron mejoría en grado variable del compromiso sensitivo motor y radicular, habiéndose observado los mejores resultados en los pacientes en quienes coexistieron siringomielia y malformación de Arnold-Chiari (Casos 7 y 8). Fue particularmente notable la mejoría de los signos de compromiso de tronco cerebral y vestibulo-cerebeloso, excepto el nistagmus que permaneció invariable en uno (Nº 7) y se observa periódicamente en el otro (Nº 8). Uno de estos casos (Nº 6) tuvo una recaída transitoria consecutiva a dos traumas sucesivos ocurridos dos meses después de la intervención; no obstante la evolución posterior ha mostrado una mejoría apreciable.

DISCUSION

Lo limitado de la casuística de esta revisión, no nos permite obtener conclu-

siones estadísticamente valederas. Sin embargo, la consideramos de utilidad en nuestro medio, para el estudio de estas entidades, cuya etio-patogenia aún no ha sido indiscutiblemente aclarada, y cuya sintomatología y signología no permiten definir un cuadro clínico único que conduzca a un diagnóstico de certeza sin la ayuda de métodos para-clínicos más o menos complejos. En nuestra revisión por ejemplo, ha sido indispensable agrupar ocho casos en cuatro síndromes clínicos, lo que ya da una idea de la dificultad del diagnóstico. Solamente en cinco no se sospechó la presencia de siringomielia, como primera o segunda posibilidad diagnóstica, la cual fue bien definida en 3. En los demás, se consideraron varios diagnósticos: compresión medular extrínseca, tumor intrínseco, compresión radicular, absceso, enfermedades degenerativas. Los tres casos con síndrome siringomielico típico, presentaban además compromiso de tronco cerebral y vestibulo-cerebeloso, lo cual condujo a plantear otras hipótesis: Siringobulbia, malformación de Arnold-Chiari (comprobada en dos y sospechada en uno) y otras malformaciones de la unión craneo-cervical (1).

Son los estudios paraclínicos, radiológicos simple y de contraste los de mayor utilidad en el diagnóstico positivo de la siringomielia y la malformación de Arnold-Chiari, bien sea que se consideren aisladamente o asociados. Encuentramos de especial utilidad la mielografía de contraste positivo en la investigación de la primera entidad y el estudio con aire (mielografía gaseosa) en la segunda. Las alteraciones de la base de cráneo, de la unión craneo-cervical, de los diámetros transverso y sagital del canal raquídeo, y de las curvaturas normales de la columna, puestas en evidencia por la radiología simple, son de gran valor. De otra parte, el aumento de diáme-

tro medular transverso, la disminución del diámetro medular sagital el estrechamiento del espacio sub-aracnoideo, las deformaciones de estructuras a nivel craneocervical, el bloqueo de la cisterna magna, la no visualización del 4º ventrículo y acueducto de Silvio, mediante estudios contrastados contribuyen significativamente al diagnóstico de certeza. Esto coincide con la opinión de los autores consultados (1-3-5-14).

En relación con nuestro análisis, son de especial significación los trabajos de Gardner y colaboradores, (8-9-10), sobre la fisiopatología de la atresia del 4º ventrículo, Arnold-Chiari, síndrome de Dandy-Walker, quiste aracnoideo del cerebelo, bloqueo del agujero de Magendie y Siringomielia. El autor plantea la hipótesis de que el bloqueo del libre flujo del LCR. a este nivel determina que las ondas iniciadas por el pulso de los plejos coroideos se transmiten en sentido caudal hacia el canal centro-medular epedínario, y conducen a la formación de una cavidad de hidromielia, si está recubierta por epéndimo, o siringomielia si se rompe el revestimiento epedimario y disecca el tejido nervioso circundante. Conway apoya esta hipótesis en reciente publicación. (3) En nuestros casos de Arnold-Chiari asociado a siringomielia no se pudo evidenciar comunicación del quiste con el 4º ventrículo, tal como lo sugieren estos autores. Tampoco se demostró la presencia de hidrocefalia. La oscuridad de la etiopatogenia, y la dificultad para el diagnóstico, de estas entidades, determinan igualmente que no hay unidad de criterio respecto a su tratamiento en particular de la siringomielia. La radioterapia (5) es sugerida por aquellos autores que participan de la idea de que la siringomielia es una cavitación de una entidad neoplásica benigna de naturaleza glial. Ninguno

de nuestros casos fue sometido a ella. Los resultados de esta terapia no han sido satisfactorios. La laminectomía (2-12-16), seguida de evacuación del quiste mediante dren permanente o por mielotomía simple, tiene asidero en la hipótesis de que el quiste se comunica de una u otra manera con el canal medular central. Su evacuación conduciría a su obliteración. Este procedimiento tampoco es siempre curativo y algunos autores ni siquiera encuentran ventaja del drenaje permanente sobre la evacuación simple. PITTS y GROFF (1966) (15) por ejemplo, al analizar los resultados de 46 operaciones en 33 pacientes durante 33 años, todos controlados por lo menos durante 2 años y la mayoría más de 5 (uno controlado durante 25 años), encontró en 22 pacientes resultados regulares y 16 malos. No encontró diferencia marcada en los resultados con las distintas técnicas.

En nuestros casos, no comparables exactamente condatos como los anteriores, el máximo control post-operatorio es de 3 años.

Los resultados obtenidos con el drenaje permanente hasta el momento, son satisfactorios, mejor aún en aquellos pacientes en los cuales se practicó además craniectomía occipital por malformación de Arnold-Chiari asociada. A este respecto, el criterio quirúrgico si está mejor definido: La craniectomía occipital decompresiva con resección del arco posterior del Atlas y cuando es necesario también del Axis, apertura amplia de la duramadre con conservación de la aracnoides para prevenir la formación de quiste aracnoideo, de rara ocurrencia, es la técnica usual. (2-4-12-16). En presencia de asociación Arnold-Chiari y Siringomielia, la aracnoides también se incide y simultáneamente se efectúa el drenaje del quiste. Los resultados de esta intervención, en nuestros

casos, han sido los mejores.

RESUMEN

Presentamos en este informe, nuestra experiencia en ocho casos de Siringomielia en dos de ellos asociada a Malformación de Arnold-Chiari, que hemos analizado desde el punto de vista clínico y de los hallazgos de radiología

simple y contrastada. Analizamos igualmente las técnicas quirúrgicas empleadas y los resultados obtenidos en siete casos que fueron intervenidos quirúrgicamente.

Finalmente comparamos nuestros hallazgos y resultados con los mencionados en la literatura y hacemos algunos comentarios sobre fisiopatología.

REFERENCIAS

1. APPLEBY, A., FOSTER, J.B., HANKINSON, J. and HUDGSON, P.: *The Diagnosis and Management of the Chiari Anomalies in Adult Life*. Brain, 91: 131-140, 1968.
2. ASENJO, A.: *Neurosurgical Techniques*, Springfield. Charles C. Thomas, 1963.
3. CONWAY, L.W.: *Hydrodynamic Studies in Syringomyelia*. J. Neurosurg., 27: 501-513, 1967.
4. DAVIS, L. y DAVIS, R.A.: *Neurocirugía* México D.F.: Ed. Interamericana, 1965. (Traducido de Edición Inglesa "Principles of Neurosurgical Surgery". Philadelphia: W.B. Saunders Co. 1963).
- 5.- DECOURT, J. et LAPRESLE, J.: *Syringomyelia*, 17077 A10, 1960. Dans *Encyclopedie Medico-Chirurgicale (Neurologie)* Paris.
- 6.- EPSTEIN, B.S.: *Afecciones de la Columna Vertebral y de la Médula Espinal*. (Traducción de la 2a. Ed. Inglesa) Barcelona: JIMS, 1965.
7. FOSTER, J.B., HUDGSON, O. and PEARSE, G.W. *The Association of Syringomyelia and Congenital Cervico-Medullary Anomalies: Pathological Evidence*. Brain, 92: 25-34, 1969.
- 8.- GARDNER, W.J.: *Hydrodynamic Mechanisms of Syringomyelia: its Relationship to Myelocele*. J. Neurol., Neurosurg., Psychiat. 28: 247-259, 1965.
- 9.- GARDNER, W.J. and ANGEL, J.: *The Mechanism of Syringomyelia and its Surgical Correction*. Clin. Neurosurg. 6: 131 - 140, 1959.
10. GARDNER, W.J., ABDULLAH, A.F. and McCORMACK, L.J.: *The Varying Expressions of Embryonal Atresia of the Fourth Ventricle in Adults. Arnold-Chiari Malformation, Dandy-Walker Syndrome, "Arachnoid" Cyst of the Cerebellum and Syringomyelia*. J. Neurosurg. 14: 591 - 607, 1957.
11. GODLEWSKI, S.: *Les aspects Neurologiques des malformations de la Charnière occipito-cervicale*, 17166 A10, 1966, Dans *Encyclopedie Medico-Chirurgicale (Neurologie)* Paris.
12. GURDJIAN S.: *Operative Neurosurgery* (2nd. Ed.) Baltimore: Williams & Wilkins, 1964.
13. KORZARY, I.Z., BRAHAM, J., SHAKED, I. and TADMOR, R.: *Cervical Syringomyelia Associated with Occipital Meningocele*. Neurology, 19: 1127 - 1130, 1969
14. PEACH, B., *Arnold-Chiari Malformation*. Arch. Neurol., 12: 613-621, 1965.

15. PITTS, F. W. and CROFF, R.A.: Syringomyelia: Current Status of Surgical Therapy. *Surgery*, 56: 806 - 809, 1964.
16. POPPEN, J.: An Atlas of Neurosurgical Techniques. Philadelphia: W.B. Saunders, 1969.
17. TAVERAS, J.M. and WOOD, E.H.: Diagnostic Neuroradiology. Baltimore, Williams and Wilkins Co. 1964.

***** • *****