

Comunicaciones breves

Prurigo actínico: A propósito de un caso

Dres. Paula Boggio^{*,#}, Darío Josviack^{*}, Daniel Marfortt^{*} y Roberto Schroh^{**}

RESUMEN

El prurigo actínico es una fotodermatosis idiopática poco frecuente, que afecta habitualmente a mestizos de diversos países americanos. Es más común en mujeres y suele iniciarse durante la primera década de vida. Compromete preferentemente la piel de áreas fotoexpuestas, así como la semimucosa labial y la conjuntiva. Con menor frecuencia se observan lesiones en piel cubierta. Clínicamente se presenta con pápulas eritematosas pruriginosas, liquenificación, hiperpigmentación posinflamatoria e inclusive cicatrices, asociadas a prurito intenso. La histopatología de las lesiones cutáneas es inespecífica. El diagnóstico se realiza estableciendo una correcta correlación clínico-patológica. El tratamiento de esta entidad constituye un verdadero desafío. Presentamos un caso de prurigo actínico en una paciente de 8 años de edad, que fue tratada satisfactoriamente con talidomida.

Palabras clave: fotodermatosis idiopática, infancia, prurigo actínico.

SUMMARY

Actinic prurigo is a rare idiopathic photodermatosis which mostly affects mestizo populations from several american countries. It is more frequent in females, with usual onset during the first decade of life. It mainly affects sun-exposed areas, as well as semimucosal surfaces of lips and conjunctiva. The uncommon compromise of covered skin areas have also been described. Clinically it manifests with erythematous papules resembling prurigo, with liquenification, post-inflammatory hyperpigmentation and sometimes scars, associated with severe itch. Histopathologic findings of skin lesions are inespecific. The diagnosis is supported on clinical and histopathological correlation. Treating this entity is a real challenge. Here we present a case of actinic prurigo occurring in an 8-year-old girl, satisfactory treated with thalidomide.

Key words: actinic prurigo, childhood, idiopathic photodermatosis.

INTRODUCCIÓN

El prurigo actínico (PA) es una fotodermatosis idiopática, de curso crónico, extremadamente infrecuente.¹⁻⁴ Hutchinson, quien lo llamó prurigo de verano, fue el primero en descubrirlo en 1879.³

Presentamos un caso de PA en una niña de 8 años de edad.

HISTORIA CLÍNICA

Paciente argentina, de sexo femenino, blanca, de 8 años de edad. Consultó por dermatosis pruriginosa que afectaba el rostro y las extremidades desde los 2 años de vida. Con diagnóstico previo de dermatitis atópica, había sido tratada con diversos corticoides (tópicos y sistémicos) y antihistamínicos anti-H1. Antecedentes personales: atopia respiratoria. Antecedentes familiares: no relevantes. El examen físico de la piel mostraba pápulas eritematosas, papulovesículas pruriginosas, excoriaciones, placas liquenificadas y áreas con hiperpigmentación residual, con predominio en el rostro (*Figura 1*) y porción distal de extremidades superiores (*Figura 2*), con distribución bilateral y simétrica. Se destacaban el compromiso de la punta nasal y la queilitis del labio superior (*Figura 3*). En piel cubierta se observaban pápulas pruriginosas aisladas. La paciente refería empeoramiento del cuadro luego de la exposición solar. Con diagnóstico presuntivo de PA, realizamos dos biopsias de piel (lesión vesicoampollar de mano y lesión pruriginosa del antebrazo). El estudio histopatológico (H&E) fue consistente con PA. El examen oftalmológico fue normal. Se inició tratamiento con talidomida a 100 mg/día durante 2 meses. Al término del primer mes, la paciente presentó remisión completa de las lesiones cutáneas y ausencia de prurito. Actualmente se encuentra sin terapia específica (por imposibilidad económica de acceder a ella), con recurrencia moderada de su dermatosis, pese a las medidas de fotoprotección instauradas.

DISCUSIÓN

El PA es una fotodermatosis idiopática rara, más frecuente en mujeres, con inicio habitual antes de la pubertad.^{1,2,4,5} Generalmente afecta a indios y mestizos de diversos países latinoamericanos –México, Guatemala, Honduras, Colombia, Perú, Bolivia y norte de Argentina– especialmente aquellos que viven en sitios localizados a más de 1.000 metros sobre el nivel del mar.^{1,4,6} Presenta curso crónico,

* Instituto de Medicina Respiratoria Infantil (IMRI), Rafaela, Santa Fe, Argentina.

** Sección Dermatopatología, Servicio de Anatomía Patológica, Hospital General de Agudos "Dr. J.M. Ramos Mejía", Buenos Aires, Argentina.

Servicio de Dermatología, Hospital General de Agudos "Dr. J.M. Ramos Mejía", Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Paula Boggio
paulaboggio@terra.com.br / paulaboggio@hotmail.com

con oscilaciones estacionales a lo largo del año.¹

Se desconoce la etiopatogenia exacta del PA. Existiría predisposición genética para su desarrollo (presencia del HLA-DR4 en hasta 90% de los pacientes con PA y ocurrencia de casos familiares),^{2,4,6} que determinaría un tipo particular de respuesta inflamatoria mediada inmunológicamente a la radiación ultravioleta (predominantemente UVB, pero también UVA y luz visible).^{4,6,7}

Clínicamente, el PA se caracteriza por el compromiso simétrico de áreas de piel fotoexpuesta y cursa con prurito intenso.^{1,5,6} Las lesiones son polimorfas e incluyen: máculas y pápulas eritematosas que confluyen formando placas, hiperpigmentación residual, excoriaciones persistentes, áreas liquenificadas y cicatrices.^{1,4,6,7} En cuadros de larga evolución se aprecia engrosamiento de la piel del rostro y alopecia de cejas, secundaria al rascado intenso.^{1,8} El compromiso del bermellón del labio inferior es muy frecuente y hasta en 9% de los casos constituye la única manifestación del PA.^{4,6,9}

Los hallazgos histopatológicos de las lesiones de piel del PA son inespecíficos: hiperqueratosis, acantosis y espongiosis epidérmicas e infiltrado inflamatorio linfocitario en la dermis superficial con vasodilatación.^{1,3,5,6} En biopsias de labio puede observarse un denso infiltrado linfocitario en la lámina propia, con formación de folículos linfoides reactivos.^{5,9} Algunos autores consideran a este hallazgo patognomónico de PA y ha sido denominado "queilitis folicular".¹

Hasta un 45% de los pacientes con PA presentan afección conjuntival.^{10,11} Las alteraciones varían desde simple hiperemia y fotofobia hasta hipertrofia de la papila con formación de pseudopterigión y pérdida completa de la visión en los casos más graves.^{1,6,9,11}

FIGURA 1. Pápulas pruriginosas y áreas de hiperpigmentación posinflamatoria en rostro



Los principales diagnósticos diferenciales del PA son: dermatitis atópica (DA), dermatitis por contacto fotosensible y EPS.¹²

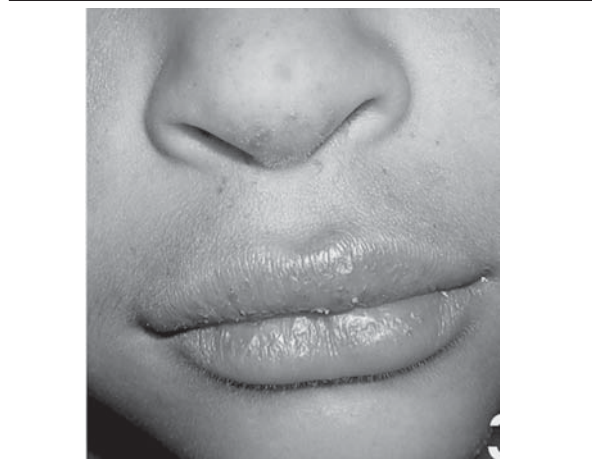
El tratamiento del PA es extremadamente difícil. Se han usado corticoides, antihistamínicos, beta-carotenos, antipalúdicos, terapia PUVA y talidomida con grados variables de éxito.⁹ La talidomida es uno de los medicamentos más eficaces para lograr control sintomático y mantener a los pacientes en remisión.^{5,13} Se postula que actuaría en el PA como un agente inmunomodulador.¹³ Entre los efectos colaterales más comunes se describen: sedación, náuseas, cefalea y constipación. No obstante, su uso debe ser rigurosamente controlado debido a sus propiedades teratogénicas, a la posibilidad de desarrollo de neuropatía periférica y neutropenia.¹⁴

Los PA considerados de inicio temprano (antes de los 20 años de edad) tienen pronóstico favorable, y se informó hasta un 62% de remisiones espontáneas. Contrariamente, los pacientes con ini-

FIGURA 2. Lesiones pruriginosas, excoriaciones y liquenificación en dorso de ambos miembros superiores



FIGURA 3. Compromiso de labios y punta nasal



cio tardío de su enfermedad presentan un curso más prolongado.¹⁵

Presentamos un caso de PA de comienzo precoz, en una niña blanca de 8 años. El diagnóstico de su dermatosis se sustentó en la adecuada correlación clínico-patológica. Los antecedentes personales de atopía respiratoria y el hecho de ser la DA uno de los principales diagnósticos diferenciales del PA, probablemente retrasaron el diagnóstico correcto de este caso en particular.

BIBLIOGRAFÍA

- Hojyo-Tomoka T, Vega-Memije E, Granados J, Flores O, Cortes-Franco R, Teixeira F, Domínguez-Soto L. Actinic prurigo: an update. *Int J Dermatol* 1995; 34:380-4.
- Grabczynska SA, McGregor JM, Kondeatis E, Vaughan RW, Hawk JL. Actinic prurigo and polymorphic light eruption: common pathogenesis and the importance of HLA-DR4/DRB1*0407. *Br J Dermatol* 1999; 140:232-6.
- Calnan CD, Meara RH. Actinic prurigo (Hutchinson's summer prurigo). *Clin Exp Dermatol* 1997; 2:365-72.
- Herrera-Geopfert R, Magaña M. Follicular cheilitis. A distinctive histopathologic finding in actinic prurigo. *Am J Dermatopathol* 1995; 17:357-61.
- Salmon Neira M, Bravo Puccio FG, Del Solar Chacaltana M, Sanchez Y, Elizabeth E. Prurigo actínico: estudio de seis casos. *Folia Dermatol Peru* 2000; 11:22-6.
- Vega-Memije ME, Mosqueda-Taylor A, Irigoyen-Camacho ME, Hojyo-Tomoka MT, Dominguez-Soto L. Actinic prurigo cheilitis: clinicopathologic analysis and therapeutic results in 116 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002; 94: (1)83-91.
- Arrese JE, Domínguez-Soto L, Hojyo-Tomoka MT, Vega-Memije E, Cortes-Franco R, Guevara E, Pierard GE. Effectors of inflammation in actinic prurigo. *J Am Acad Dermatol* 2001; 44:957-61.
- Hojyo-Tomoka MT, Domínguez-Soto L, Vargas-Ocampo F. Actinic prurigo: clinical-pathological correlation. *Int J Dermatol* 1978; 17:706-10.
- Mounsdon T, Kratochvil F, Auclair P, Neale J, Lee L. Actinic prurigo of the lower lip. Review of the literature and report of five cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988; 65:(3)327-32.
- Fletcher DC, Romanchuk KG, Lane PR. Conjunctivitis and pterygium associated with the American Indian type of polymorphous light eruption. *Can J Ophthalmol* 1988; 23:30-3.
- Méndez Arellano Y, Magaña García M, Rodríguez Reyes A. Alteraciones conjuntivales en niños con prurigo actínico. *Rev Mex Oftalmol* 1999; 73:119-24.
- Londono F. Prurigo actínico. *An Bras Dermatol* 1984; 59:137-41.
- Lovell CR, Hawk JL, Calnan CD, Magnus IA. Thalidomide in actinic prurigo. *Br J Dermatol* 1983; 108:467-71.
- Proença NG. Emprego da talidomida em dermatologia. *An Bras Dermatol* 1995; 70:61-7.
- Stefanaki C, Valari M, Antoniou C, Stratigos A, Stefanaki K, Iordanidou A. Actinic prurigo in an Albanian girl. *Pediatr Dermatol* 2006; 23:97-8.

Hematoma traumático del psoas

Dres. Roberto Rocco*, Laura Benedetti*, Cecilia Pannocchia* y Horacio Miscione**

RESUMEN

Los hematomas del psoas se suelen observar en pacientes con hemofilia u otras discrasias sanguíneas y como complicación de tratamientos anticoagulantes. Con menor frecuencia se pueden ver en personas sanas, debido a la rotura traumática del músculo. Por similares causas se producen hematomas del músculo ilíaco. La parálisis del nervio femoral es la complicación más grave y frecuente de ambas afecciones. Es habitual denominar a estos cuadros como hematomas del iliopsoas y considerarlos en conjunto por las características anatómicas, etiológicas, patológicas y clínicas que presentan. Describimos el caso de un niño de 12 años y 8 meses de edad, sin coagulopatía conocida, que padeció un hematoma del psoas de origen traumático.

Palabras clave: hematoma del psoas de origen traumático, parálisis del nervio femoral.

SUMMARY

Psoas hematomas are usually seen in patients with hemophilia or other blood dyscrasias, and as a complication of anticoagulant treatments. With less frequency they may be found in healthy persons as a result of traumatic muscle rupture. Similar causes produce hematomas in the iliac muscle. The paralysis of the femoral nerve is the most serious and frequent complication in both conditions. These clinical pictures are often referred to as iliopsoas hematoma and they are generally considered together owing to the anatomic, etiologic, pathologic and clinical features that present. We describe a boy of 12 years and 8 month old, with no coagulopathy, who suffered a psoas hematoma of traumatic origin.

Key words: psoas hematoma of traumatic origin, paralysis of the femoral nerve.

* Clínica Pediátrica.

** Ortopedia.

Hospital de Pediatría "Prof. Dr. J.P. Garrahan"

Correspondencia: Dr. Roberto Rocco

robrocky@hotmail.com

INTRODUCCIÓN

Los hematomas por sangrado muscular en el psoas o el ilíaco, originan un síndrome caracterizado por dolor inguinal, lumbar y abdominal inferior, una masa hiperestésica en la fosa ilíaca, contractura

en flexión de la cadera y neuropatía por compresión del nervio femoral.^{1,2} Estos hallazgos son homolaterales al músculo lesionado. Se trata de una complicación relativamente frecuente en hemofílicos^{1,3} y en adultos que reciben tratamiento anticoagulante.^{4,5} Este síndrome también se puede observar en personas previamente sanas, debido a la rotura traumática de los mencionados músculos, vinculada o no a actividades deportivas. No son muchos los casos descritos en la literatura^{2,6-11} y predominan en adolescentes y adultos jóvenes.

CASO CLÍNICO

Niño de 12 años de edad sin antecedentes relevantes, que comenzó con vómitos, de aspecto claro y algunos biliosos, más dolor lumbar derecho con irradiación al flanco homolateral. El diagnóstico presuntivo de abdomen agudo quirúrgico se descartó por la semiología y la evolución.

En reposo se atenuaban los síntomas dolorosos, que se exacerbaban por movimientos del tronco y del miembro inferior derecho. Al intentar la deambulación sufrió lipotimias en dos ocasiones, precedidas por intenso dolor lumbar y del cuadrante abdominal inferior. No se obtuvieron los valores de hemoglobina ni de hematocrito. A nueve días del inicio del cuadro se le hizo una ecografía abdominal que mostró el psoas derecho aumentado de tamaño, de límites poco definidos, con áreas hiperecoicas por sangrado y ruptura de fibras; mientras que el psoas izquierdo estaba normal (*Figura 1*).

Diagnóstico: hematoma del músculo psoas derecho de probable origen traumático.

Con reposo obligado y la toma de analgésicos, el niño continuaba con alivio parcial del dolor y no podía mantenerse en bipedestación. Nunca tuvo

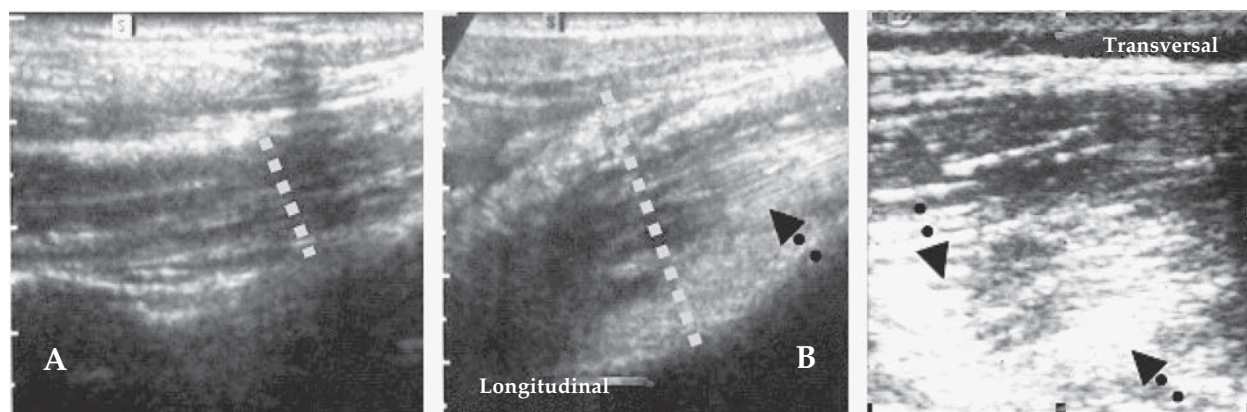
fiebre ni escalofríos. Luego de 3 meses de evolución y ante la falta de resolución del cuadro, se consultó en nuestro hospital. No tenía antecedente a destacar excepto que había hecho un gran esfuerzo unos días previos al inicio de los síntomas, al ayudar a levantar un portón con un movimiento de máxima extensión de la cadera.

Al examen físico, presentaba el miembro inferior derecho flexionado en posición antiálgica (con ángulo de 30° del muslo sobre la cadera), no podía extenderlo ni apoyarlo sobre el suelo debido al intenso dolor, el que también le limitaba otros movimientos. El intento de extensión pasiva de la cadera le agravaba el dolor (signo del psoas). El cuádriceps se mostraba hipotrófico. No fue posible valorar adecuadamente la flexoextensión de la rodilla, el reflejo patelar era débil y se constató hipostesia de la cara anterior del muslo y la pierna. Por estos hallazgos se hizo el diagnóstico de neuropatía por compresión del nervio femoral, debida a hematoma del psoas.

Resultados de los estudios de laboratorio: hematocrito 38,5%, hemoglobina 13,7 g/dl, leucocitos 5.700 por mm³, neutrófilos segmentados 60%, linfocitos 38%, monocitos 2%, plaquetas 290.000 por mm³. Eritrosedimentación: 7 mm. KPTT: 32 segundos. Concentración de protrombina: 96%. Urea: 18 mg/dl. Creatinina: 0,67 mg/dl. Urocultivo negativo.

Se le indicó analgesia combinada con ibuprofeno y codeína para poder iniciar y mantener la kinesioterapia. Dos ecografías abdominales de control obtenidas luego de 2 meses y 3 meses y medio, mostraron sólo rastros del hematoma la primera, y normalidad la segunda. A los 6 meses, recuperó la movilidad completa y tuvo deambulación normal.

FIGURA 1. A: Psoas izquierdo normal. B: Psoas derecho aumentado de tamaño (línea de puntos blancos), de límites poco definidos, pérdida de la ecoestructura normal, con áreas hiperecoicas por sangrado (flechas negras) y ruptura de fibras musculares



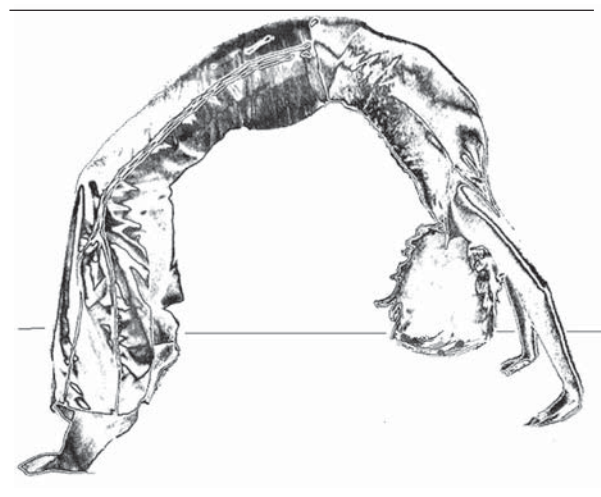
DISCUSIÓN

Los músculos psoas e ilíaco que en conjunto forman el iliopsoas, son poderosos flexores del tronco y el muslo, contribuyen al mantenimiento de la postura y a la estabilización de la cadera.^{7,12}

Una resbalada, una caída hacia atrás, una voltejeta gimnástica similar a la que muestra la *Figura 2* u otro tipo de esfuerzo extremo que provoque una extensión máxima de la cadera sobre el muslo, como ocurrió en nuestro paciente, son las causas más probables de la rotura o desgarro de las fibras musculares y de los pequeños vasos sanguíneos del psoas o del ilíaco,⁷⁻¹⁰ seguido de hemorragia y formación del hematoma. La contracción excesivamente fuerte del músculo ilíaco, para mantener o recuperar el equilibrio entre el tronco y el muslo, después de una posición de hiperextensión de la cadera, puede provocar rotura muscular o avulsión de sus inserciones y dar origen a un hematoma del ilíaco.^{2,10,11} Los traumatismos cerrados, con impacto sobre la región lumbar o el flanco, rara vez causan hemorragia del iliopsoas^{6,7,10} debido a su ubicación anatómica profunda.

El nervio femoral es el de mayor volumen que nace del plexo lumbar; luego de atravesar la masa muscular del psoas, desciende dentro de su fascia. En la pelvis se sitúa primero entre los músculos psoas e ilíaco y luego sobre este último, para quedar cubierto por la densa fascia ilíaca.^{9,12} Es el nervio motor del iliopsoas y del cuádriceps crural (extensión de la rodilla) y sensitivo de la zona anteromedial del miembro inferior.¹² Esta particular disposición anatómica, explica por qué en los hematomas del iliopsoas se lesiona el nervio femoral.

FIGURA 2. Gimnasta en posición de máxima extensión de la cadera



La hemorragia despega la fascia del iliopsoas.¹ El hematoma provoca la neuropatía o degeneración nerviosa por compresión e isquemia del nervio femoral.^{5,8,9} Como la porción distal de la fascia iliaca es más densa y menos extensible, es en esta especie de embudo anatómico que se hace mayor la compresión nerviosa.^{1,7,9}

Los pacientes con hematomas del psoas pueden presentarse con signos de hipovolemia e incluso estado de choque, ya que el músculo puede contener mucho volumen de fluido⁴ y el retroperitoneo tiene gran capacidad para tolerar un sangrado extenso.⁷ Esta situación es más probable si existe coagulopatía previa.⁴

La posición característica de la cadera en flexión del lado afectado se debe al espasmo muscular inicial,¹ a la expansión hacia adelante de la fascia del iliopsoas,¹ y a que se trata de reducir la tensión por estiramiento del nervio femoral para aliviar el dolor.^{8,13}

El cuadro clínico completo por hematoma del iliopsoas se puede instalar en las horas siguientes al traumatismo o presentarse de manera insidiosa en pocos días.^{2,6,7,9-11} Rara vez se observan hematomas o equimosis de la pared abdominal, la ingle o la parte superior del muslo.^{7,8} Se puede hallar una masa palpable no pulsátil en la fosa ilíaca o tumefacción en la ingle, con hiperestesia cutánea, dolor a la palpación y aun defensa,^{2,5,8-11} signo imposible de objetivar en nuestro paciente por su larga evolución. La presencia de vómitos ocasionales incluso biliosos, debidos a íleo reflejo, con dolor en el flanco o la fosa ilíaca derechos, pueden simular apendicitis aguda,^{7,9} como se observó en nuestro caso.

El dolor es habitualmente el síntoma que motiva la consulta, es inmediato al trauma y suele atenuarse espontáneamente durante un tiempo variable de pocas horas a días,^{2,6-8,10,11} para luego hacerse progresivamente muy intenso. El dolor predomina en la zona lumbar, el abdomen y la cadera, si el hematoma es del psoas;^{7,9} y localizado de preferencia en la cadera, la fosa ilíaca, la ingle y el muslo, si el afectado es el ilíaco.^{7,9,11}

Hay dificultad para la marcha y para mantener la posición de pie, debido al dolor y la debilidad de la extremidad afectada.⁹⁻¹¹ Los movimientos activos suelen quedar reducidos a la mínima amplitud y el intento de extender pasivamente la cadera contracturada agrava el dolor (signo del psoas).^{2,5,9,11} La parálisis del cuádriceps impide la extensión activa de la rodilla, que se mantiene en flexión, con reflejo patelar débil o ausente.^{2,8-11} Hay parestesias y disminución o pérdida de la sensibilidad cutánea correspondientes al área de

inervación del nervio femoral^{2,5,8-11} y a veces del nervio femorocutáneo lateral.²

El diagnóstico se sospecha por la anamnesis y el cuidadoso examen físico, y se confirma con los estudios de imágenes. Es esencial saber si el paciente padece un trastorno de la coagulación, si tuvo un traumatismo reciente, practica un deporte o ha hecho un esfuerzo inusual, como sucedió en nuestro niño. Entre los diagnósticos diferenciales se pueden mencionar: apendicitis aguda (en los casos de hematomas del lado derecho),^{7,9} abscesos del compartimiento del iliopsoas (vaina),¹⁴ colecciones supuradas o tumores retroperitoneales,^{4,9} artritis de cadera,⁹ fractura de la espina ilíaca posterosuperior⁶ y hernia de disco lumbar.^{6,7}

La ecografía es útil para detectar sangrado de partes blandas profundas,³ como el retroperitoneo, iliopsoas y pelvis, aunque puede ser dificultosa en los casos de íleo reflejo local.⁴ El hematoma provoca aumento de tamaño del músculo iliopsoas y le da forma redondeada en el plano transversal, comparado con el normal del lado opuesto y se puede observar ruptura de las fibras musculares como en la *Figura 1*. En la tomografía computada, el hematoma del psoas suele tener apariencia proteiforme, con el músculo aumentado de volumen.^{2,15} La masa puede tener densidad variable, que depende del tiempo transcurrido desde el sangrado;^{4,8,14} a veces se puede observar un nivel líquido que corresponde a la colección sanguínea.¹⁵ La tomografía también puede distinguir el hematoma del psoas de otras masas retroperitoneales como abscesos, linfomas y otros tumores,¹⁵ con aparente ventaja sobre la ecografía para el diagnóstico diferencial de estos últimos.¹⁵ Un hallazgo distintivo tomográfico sería la conservación de los planos fasciales en los hematomas del iliopsoas¹⁶ e imágenes hiperdensas en los sangrados recientes.¹⁴ Sin embargo, el diagnóstico diferencial de las patologías del compartimiento del iliopsoas es dificultoso, ya que a veces las lesiones tumorales, inflamatorias y hemorrágicas son indistinguibles en la tomografía computada.¹⁴

En los pacientes hemofílicos se producen con frecuencia sangrados menores intramusculares e intermusculares. Entre los sitios afectados se incluye la hemorragia dentro de la vaina del iliopsoas, que provoca el síndrome ya descrito.^{1,3} En la hemofilia, el sangrado es espontáneo o con antecedentes de traumatismos leves, una caída u otros esfuerzos físicos previos,^{3,9} y la mayor incidencia se observa entre los 10 y 25 años.¹

El tratamiento de los hematomas traumáticos del iliopsoas es discutido. Algunos indican la evacuación quirúrgica, sobre todo en los de gran

tamaño, para disminuir la presión sobre las raíces y troncos nerviosos y así minimizar la posibilidad de daño neurológico permanente.^{2,8,10,11} Otros informan de casos similares al nuestro, con recuperación completa de la parálisis femoral con tratamiento conservador.⁹ Se considera que esta última conducta puede ser una alternativa razonable, siempre que la hemodinamia del paciente se mantenga estable y no haya sospecha de sangrado continuo, documentados por hematócritos seriados y control del tamaño del hematoma por imágenes. La cirugía estaría indicada si hay progresión del sangrado, parálisis completa sin signos de recuperación en lo inmediato o ambos.^{2,10} La neuropatía femoral es habitualmente reversible; el tiempo para la recuperación es variable y a veces prolongado.^{10,11} En muy pocos casos ha persistido algún grado de déficit neurológico.^{10,11} Los pacientes hemofílicos se tratan con reposición de factor VIII o IX hasta que cesa el sangrado y se contraindica la cirugía.^{1,3,9} ■

BIBLIOGRAFÍA

1. Goodfellow J, Fearn CBd'A, Matthews JM. Iliacus haematoma. A common complication of haemophilia. *J Bone Joint Surg* 1967; 49B:748-56.
2. Takami H, Takahashi S, Ando M. Traumatic rupture of iliacus muscle with femoral nerve paralysis. *J Trauma* 1983; 23:253-4.
3. Tachdjian MO. *Ortopedia Clínica Pediátrica*. Buenos Aires: Editorial Médica Panamericana, 1999.
4. Chevalier X, Larget-Piet B. Femoral neuropathy due to psoas hematoma revisited. Report of three cases with serious outcomes. *Spine* 1992; 17:724-6.
5. Nobel W, Marks SC Jr, Kubik S. The anatomical basis for femoral nerve palsy following iliacus hematoma. *J Neurosurg* 1980; 52:533-40.
6. Fetchen SA, Omohundro P. Pelvic injury-football (Annual meeting abstracts). *Med Sci Sports Exerc* 1998; 30 Supp: 142.
7. Margulies D, Teng F. Psoas muscle hematoma from blunt trauma: an unusual cause of severe abdominal pain. *J Trauma* 1998; 45:155-6.
8. Giuliani G, Poppi M, Acciarri N, Forti A. CT Scan and surgical treatment of traumatic iliacus hematoma with femoral neuropathy: case report. *J Trauma* 1990; 30:229-31.
9. Fealy S, Paletta GA Jr. Femoral nerve palsy secondary to traumatic iliacus muscle hematoma: course after nonoperative management. *J Trauma* 1999; 47:1150-2.
10. Gertzbein SD, Evans DC. Femoral nerve neuropathy complicating iliopsoas haemorrhage in patients without haemophilia. *J Bone Joint Surg* 1972; 54B:149-51.
11. Green JP. Proximal avulsion of the iliacus with paralysis of the femoral nerve. *J Bone Joint Surg* 1972; 54B:154-6.
12. Moore KL. *Clinically oriented anatomy*, 3rd ed. Baltimore: Williams & Wilkins, 1992.
13. Kettlekamp DB, Powers SR. Femoral compression neuropathy in hemorrhagic disorders. *Arch Surg* 1969; 98:367-8.
14. Lenchik L, Dovgan DJ, Kier R. CT of the iliopsoas compartment: value in differentiating tumor, abscess, and he-

- matoma. Am J Roentgenol 1994; 162:83-6.
15. Mendez G, Isikoff MB, Hill MC. Retroperitoneal processes involving the psoas demonstrated by computed tomography. J Comput Assist Tomogr 1980; 4:78-81.
16. Feldberg MA, Koehler PR, van Waes PF. Psoas compartment disease studied by computed tomography. Analysis of 50 cases and subject review. Radiology 1983; 148:505-12.

Terlipresina en el shock séptico refractario a catecolaminas. Presentación de un caso

Dres. Hilario A. Ferrero*, Augusto Pérez*, Pablo Eulmesekian*, Pablo Minces* y Silvia Díaz*

RESUMEN

El shock séptico puede causar hipotensión refractaria al tratamiento con líquidos endovenosos o altas dosis de catecolaminas; estos niños tienen peor pronóstico. En este escenario pueden resultar beneficiosas las terapias alternativas capaces de revertir el estado de vasodilatación grave.

La terlipresina es un análogo sintético de la vasopresina de vida media prolongada que se utiliza en el tratamiento del sangrado por várices esofágicas. Su afinidad por los receptores vasculares es superior a la vasopresina, con potente efecto vasoconstrictor, demostrado en modelos animales y en adultos con shock séptico resistente a catecolaminas.

Recientemente se informó la utilización de la terlipresina en niños con shock séptico resistente a noradrenalina. El objetivo de esta presentación es comunicar el uso de terlipresina en un paciente con shock séptico por meningococo, resistente a catecolaminas.

Palabras clave: shock séptico, meningococo, terlipresina, pediatría.

SUMMARY

Septic shock in pediatric patients may cause severe hypotension, refractory to adequate volume resuscitation and high dose catecholamines. Outcome in this group of patients is rather poor. In this scenario, alternative therapies directed to reverse vasodilatation, could help in the treatment of systemic hypotension.

Terlipressin is a synthetic vasopressin analog with a longer half life that has been successfully used to treat esophageal variceal hemorrhage. It has higher affinity for vascular receptors than vasopressin, with a potent vasoconstrictor effect in animal models, as well as in adults with norepinephrine resistant septic shock.

The administration of terlipressin in pediatric septic shock patients resistant to norepinephrine, has been recently published. The aim of this report is to communicate the administration of terlipressin to a child with a meningococcal septic shock resistant to catecholamine therapy.

Key words: septic shock, meningococemia, terlipressin, pediatrics.

INTRODUCCIÓN

La mortalidad del paciente con shock séptico en pediatría continúa siendo elevada (30-35%), principalmente en aquellos pacientes resistentes al tratamiento con altas dosis de catecolaminas.¹⁻³ Un tratamiento dirigido a revertir el estado de vasodilatación puede resultar beneficioso.⁴

HISTORIA CLÍNICA

Niña de 11 meses de edad, internada en la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP) del Hospital Italiano de Buenos Aires por un cuadro de fiebre y púrpura. Sin antecedentes patológicos de relevancia clínica.

Inicialmente afebril, lúcida, con puntaje de Glasgow 15/15, sin signos meníngeos, frecuencia cardíaca (FC) 155 por minuto, presión arterial media (PAM) 60 mm Hg, extremidades frías, pulsos periféricos débiles, relleno capilar 3 seg. Se administró oxígeno por cánula nasal e inició infusión de cristaloides por acceso vascular periférico. A los 20 minutos, luego de haber recibido 40 ml/kg de cristaloides, la paciente presentó mayor deterioro hemodinámico, FC 170/min y PAM 40 mm Hg. Durante los primeros 60 minutos se obtuvo un acceso vascular central para infusión de dopamina, que se tituló hasta alcanzar rápidamente la dosis de 10 µg/kg/min. Se administraron 120 ml/kg de cristaloides y coloides, en total, en los primeros 90 minutos. Luego de la reanimación con líquidos endovenosos e infusión de dopamina, teniendo en cuenta los hallazgos clínicos, el cuadro se definió como shock hiperdinámico y se inició la infusión de noradrenalina. Como parte del tratamiento, durante la etapa de reanimación inicial, la niña ingresó en asistencia respiratoria mecánica (ARM) controlada, administrándose, además, esteroides.

El laboratorio mostró: acidosis metabólica (pH 7,18, bicarbonato 13 mmol/l), glucemia 60 mg/dl,

* Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos. Hospital Italiano de Buenos Aires.

Correspondencia:

Dr. Hilario A. Ferrero

hilario.ferrero@hospitalitaliano.org.ar

hematócrito 18%, leucocitos 2.000/mm³, plaquetas 50.000/mm³, tiempo de Quick 25%, KPTT 175 seg, Dímero D entre 2-4, PDF 80-160; se corrigieron la anemia, la acidosis metabólica y la glucemia. El ácido láctico era de 4,5 mmo/l, la saturación venosa central de O₂ 71% y el líquido cefalorraquídeo (obtenido en forma diferida) arrojó glucorraquia 36 mg/dl, proteinorraquia 23 mg/dl y leucocitos 8 cél/mm³.

A las 10 horas del ingreso, con diagnóstico de shock séptico refractario a catecolaminas, se realizó monitoreo hemodinámico avanzado con catéter Swan-Ganz. Las dosis de catecolaminas en ese momento eran: dopamina 10 µg/kg/min, adrenalina 1 µg/kg/min, noradrenalina 1 µg/kg/min.

El patrón hemodinámico predominante en las primeras horas fue de shock hiperdinámico con índice cardíaco (IC) normal/aumentado e índice de resistencia vascular sistémica (IRVS) baja (*Figura 1*). Debido a la refractariedad a catecolaminas se indicó terlipresina IV. Luego de una dosis a 0,02 mg/kg se evidenció aumento del IRVS, lográndose discontinuar la noradrenalina en las siguientes 5 horas y reducir el goteo de adrenalina a 0,02 µg/kg/min hasta su suspensión 7 horas más tarde.

Durante la estadía en UCIP presentó fallo multiorgánico, requiriendo: ARM durante 10 días, hemodiálisis por 24 horas y hemofiltración durante 72 horas.

La niña permaneció internada durante 18 días (13 en UCIP). Al momento del alta las secuelas fueron: necrosis con amputación de la porción distal de la tercera falange del quinto dedo del pie izquierdo y tres lesiones en las piernas que requirieron injertos de piel para su resolución definitiva.

DISCUSIÓN

A partir del trabajo de Ceneviva y col. en 1998,⁵ podemos dividir al shock séptico, en función de su respuesta al tratamiento, en cuatro formas clínicas: con respuesta a fluidos, refractario a fluidos y sensible a dopamina, refractario a dopamina y refractario a catecolaminas. Este estudio incluyó 40 pacientes con monitoreo hemodinámico avanzado. El 47,5% tenía IC bajo e IRVS altas, el 25% IC alto e IRVS bajas, el 27,5% IC e IRVS normales. El patrón hemodinámico observado en los pacientes del segundo grupo es el de shock hiperdinámico. Estos patrones pueden variar en la evolución de la enfermedad.

La vasopresina es un neuropéptido que se libera en respuesta al aumento de la osmolaridad plasmática, hipovolemia o hipotensión e induce incremento de la PAM y disminución del gasto cardíaco (GC),

ligado principalmente al efecto cronotrópico negativo. Las concentraciones en plasma son muy altas en el shock cardiogénico o en el hipovolémico. La secreción disminuye si el estímulo persiste en el tiempo, lo cual explicaría el patrón bifásico observado en el shock séptico, con elevación temprana y disminución luego de aproximadamente 36 horas.^{6,7} Esto fundamenta la utilización de la vasopresina o su derivado, la terlipresina en pacientes con hipotensión refractaria al tratamiento con adecuada reanimación con fluidos y altas dosis de catecolaminas. El efecto vasoconstrictor de la vasopresina puede alcanzarse con dosis fisiológicas. Los efectos secundarios de este medicamento son la alteración de la hemodinamia regional por vasoconstricción renal, mesentérica, pulmonar y coronaria.⁷

La terlipresina, un análogo sintético de la vasopresina, se ha utilizado con éxito en el tratamiento de sangrado por várices esofágicas, diabetes insípida y síndrome hepatorenal.⁸ Su efecto directo lo ejerce a través de receptores V1a endoteliales. Estos están relacionados con la disminución del GC. Su efecto sobre el lecho vascular es particularmente heterogéneo desde el punto de vista topográfico; produce vasoconstricción en la piel, músculo esquelético, tejido adiposo, páncreas, tiroides y menos sobre el territorio mesentérico, las arterias coronarias y el tejido cerebral.⁶ La caída del GC y la vasoconstricción sobre la macrocirculación y la microcirculación esplácnica podrían explicar uno de los efectos colaterales de este fármaco, la isquemia de la mucosa gástrica. Van Haren y col.,⁹ estudiaron la acción de la vasopresina en una serie de 11 pacientes con shock séptico refractario y concluyeron que, a las 4 horas de la administración, el flujo gástrico disminuía en forma considerable. Sin embargo, Morelli y col.,¹⁰ demostraron, a través de la medición del flujo gástrico por medio de láser-doppler y tonometría gástrica, que, en pacientes con shock séptico refractario al tratamiento con noradrenalina y tratados con terlipresina, se producía un incremento en la perfusión de la mucosa gástrica. Este efecto estaría mediado por el aumento de la PAM.

Otros efectos colaterales descriptos son la elevación de las transaminasas y trombocitopenia sin alteraciones en el resto de la coagulación.¹¹

Albanese y col.,¹² realizaron un estudio prospectivo e incluyeron 20 pacientes adultos con shock hiperdinámico que, luego de una adecuada reanimación con fluidos, recibieron en forma aleatoria noradrenalina o terlipresina. Ambas produjeron un incremento de la PAM y del ritmo diurético; sólo los pacientes tratados con terlipresina presen-

taron caída del GC, de la disponibilidad y del consumo de oxígeno.

La terlipresina tiene ventajas sobre la vasopresina: mayor afinidad por los receptores vasculares y vida media de 6 horas, lo que permite el tratamiento con administración intermitente en lugar de infusión continua.^{7,10} Una dificultad inherente a la terlipresina es el no poder titularse una vez administrada.

Si bien está descrita la infusión continua de terlipresina como opción de tratamiento,¹³ O'Brien y col.,¹⁴ informaron su administración en una única dosis en un paciente adulto con shock séptico refractario a catecolaminas. Estos autores señalan, además, la posibilidad de mejoría en la respuesta del lecho vascular a las catecolaminas.¹⁴ Esta forma de administración fue similar al caso presentado. También observamos una mejoría hemodinámica significativa luego de la administración del medicamento. El efecto vasoconstrictor fue más prolon-

gado que lo esperado por su vida media y se especula con la posibilidad de algún efecto sensibilizador a las catecolaminas.

Recientemente, Rodríguez y col.,¹⁵ publicaron la experiencia multicéntrica a través de un estudio observacional realizado en forma prospectiva. Dieciséis niños con shock séptico refractario recibieron terlipresina en forma intermitente como última estrategia de tratamiento; la PAM mejoró y fue posible disminuir las dosis de catecolaminas; siete niños sobrevivieron.

En nuestra paciente, la administración de una sola dosis relativamente baja de terlipresina (0,02 mg/kg)¹⁵ fue suficiente para revertir la hipotensión refractaria a catecolaminas y en pocas horas pudimos discontinuar con éxito los vasoconstrictores.

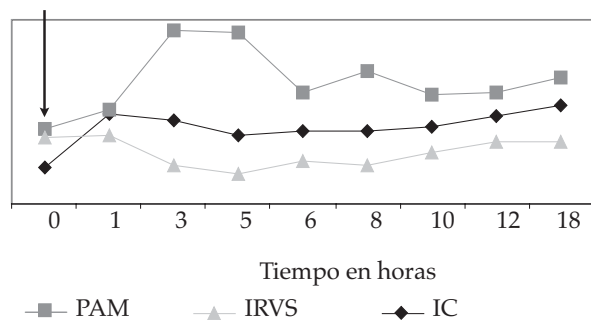
CONCLUSIÓN

La terlipresina podría ser una alternativa de tratamiento en pacientes con shock séptico refrac-

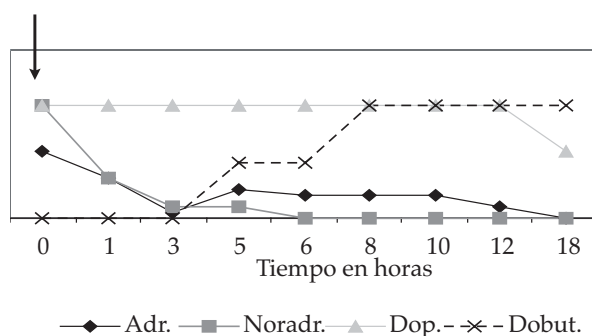
FIGURA 1. Variables hemodinámicas medidas antes y después de la infusión de terlipresina. Relación con las dosis de medicación inotrópica/vasoactiva

VARIABLES HEMODINÁMICAS Y MEDICACIÓN INOTRÓPICA/VASOACTIVA	Pre-infusión	1 hs	3 hs	5 hs	6 hs	8 hs	10 hs	12 hs	18 hs
Presión arterial media	56	74	68	55	59	60	62	71	81
Presión aurícula derecha	15	20	11	13	19	18	16	13	15
Presión arteria pulmonar media	24	30	21	23	30	28	27	24	25
Presión de enclavamiento	20	19	13	17	21	19	18	15	16
Gasto cardíaco	2,4	2,4	1,4	1	1,5	1,4	1,8	2,2	2,2
Índice cardíaco	5,4	5,6	3,2	2,4	3,5	3,1	4,1	5,1	5,1
Índice de resistencias vasculares sistémicas	607	771	1.425	1.400	914	1.084	898	910	1.035
Índice de resistencias pulmonares	59	157	200	200	206	232	176	141	141
Adrenalina	0,6	0,35	0,05	0,25	0,2	0,2	0,2	0,1	-
Noradrenalina	1	0,35	0,1	0,1	-	-	-	-	-
Dopamina	10	10	10	10	10	10	10	10	6
Dobutamina	-	-	-	5	5	10	10	10	10

VARIABLES HEMODINÁMICAS EN REACCIÓN CON LA INFUSIÓN DE TERLIPRESINA



DROGAS VASOACTIVAS EN REACCIÓN CON LA INFUSIÓN DE TERLIPRESINA



tario a fluidos y catecolaminas. Si se considera que el patrón hemodinámico del shock séptico en niños puede variar, el monitoreo hemodinámico avanzado es recomendable cuando se considera el uso de esta medicación. ■

BIBLIOGRAFÍA

1. Carcillo JA, Fields AI, Task Force Committee Members. Clinical practice parameters for hemodynamic support of pediatric and neonatal patients in septic shock. *Crit Care Med* 2002; 30(6): 1365-1378.
2. Matok I, Vard A, Efrati O. Terlipressin as rescue therapy for intractable hypotension due to septic shock in children. *Shock* 2005; 23:305-310.
3. Matok I, Leibovitch L, Vardi A. Terlipressin as rescue therapy for intractable hypotension during neonatal septic shock. *Pediatr Crit Care Med* 2004; 5:116-118.
4. Peters MJ, Booth RA, Petros AJ. Terlipressin bolus induces systemic vasoconstriction in septic shock. *Pediatr Crit Care Med* 2004; 5:112-115.
5. Ceneviva G, Paschall JA, Maffei F, Carcillo JA. Hemodynamic support in fluid-refractory pediatric septic shock patients. *Pediatrics* 1998; 102:19-25.
6. Delmas A, Leone M, Albanese J. Clinic review: Vasopressin and terlipressin in septic shock patients. *Crit Care* 2005; 9(2):212-222.
7. Rodríguez Nuñez A, Fernández San Martín M, Martínón Torres F. Terlipressin for catecholamine-resistant septic shock in children. *Intensive Care Med* 2004; 30:477-480.
8. Moreau R. Hepatorenal syndrome in a patient with cirrhosis. *J Gastroenterol Hepatol* 2002; 17:739-747.
9. Van Haren FM, Rosendaal FW, Van Der Haeven JG. The effect of vasopressin on gastric perfusion in catecholamine-dependent patient in septic shock. *Chest* 2003; 124(6):2256-2260.
10. Morelli A, Rocco M, Conti G. Effects of terlipressin on systemic and regional haemodynamics in catecholamine-treated hyperkinetic septic shock. *Intensive Care Med* 2004; 30:597-604.
11. Leone M, Albanese J, Delmas A. Terlipressin in catecholamine-resistant septic shock patients. *Shock* 2004; 22(4):314-319.
12. Albanese J, Leone M, Delmas A. Terlipressin or norepinephrine in hyperdynamic septic shock: A prospective, randomized study. *Crit Care Med* 2005; 33(9):1897-1902.
13. Zeballos G, López H, Fernández C. Rescue therapy with terlipressin by continuous infusion in a child with catecholamine-resistant septic shock. *Resuscitation* 2006; 68(1):151-153 E pub 2005.
14. O'Brien A, Clapp L, Singer M. Terlipressin for norepinephrine-resistant septic shock. *Lancet* 2002; 359(9313):1209-1210.
15. Rodríguez NA, López HJ, Gil AJ. Rescue treatment with terlipressin in children with refractory septic shock: a clinical study. *Crit Care* 2006; 10:R20.