

Síndrome febril con dolor y tumefacción palmar en paciente con espondilitis anquilosante

OLLER RODRÍGUEZ JE, VALLS PASCUAL E, VICENS BERNABEU E, VERGARA DANGOND C, ROBUSTILLO VILLARINO M, YBÁÑEZ GARCÍA D, MARTÍNEZ FERRER A, ALBERT ESPÍ G, DE LA MORENA BARRIO I, ALEGRE SANCHO JJ
Sección de Reumatología. Hospital Universitario Dr. Peset. Valencia

Correspondencia: Juan José Alegre Sancho - Sección de Reumatología - Hospital Universitario Dr. Peset - Avda. Gaspar Aguilar, 90 - 46017 Valencia

✉ alegre_juasan@gva.es

CASO

Varón de 61 años, con antecedentes personales de hipertensión arterial y tabaquismo activo (15 años/paquete). En seguimiento por nuestra parte por Espondilitis Anquilosante HLA-B27 + con afección axial y uveítis anterior aguda recidivante, en tratamiento con sulfasalazina a dosis diaria de 2 gramos. Analíticamente, siempre había destacado el hallazgo de un alargamiento del TTPA con 3 determinaciones de anti-coagulante lúpico positivas, sin evidencia de patología trombótica asociada.

El paciente fue remitido a Reumatología por fiebre de 48 horas de evolución sin afección del estado general que se acompaña de dolor y eritema mal delimitados en la palma de la mano derecha junto a parestesias en 4º y 5º dedos de dicha mano. Previamente, había consultado con su médico de Atención Primaria y había iniciado tratamiento con amoxicilina-clavulánico ante la sospecha de celulitis. La exploración física era compatible con la sospecha inicial del médico de cabecera y el paciente había apreciado cierta mejora clínica, por lo que se mantuvo la pauta antibiótica y se citó al paciente en 7 días con una analítica de control para valorar evolución.

El paciente acudió, 48 horas después por persistencia de la clínica y empeoramiento de las parestesias asociadas a pesar de que la fiebre había remitido. A la exploración se objetivó que la tumefacción y el eritema se habían circunscrito a la eminencia hipotenar (Figura 1), y no evidenciamos nuevos hallazgos. En la analítica, se

detectó elevación de reactantes de fase aguda. Se practicó un estudio ecográfico en el que se evidenció una imagen sacular hipoecoica dependiente de la arteria cubital, cuya luz estaba parcialmente ocupada por material hipoecoico sin señal Doppler, todo ello compatible con una dilatación aneurismática de la arteria cubital (Figuras 2 y 3). Estos hallazgos ecográficos fueron confirmados por el Servicio de Cirugía Vasculard, y se indicó tratamiento quirúrgico urgente para evitar complicaciones. Previo a la cirugía, y en el mismo día, se procedió a realizar un estudio de Angio-TC para acabar de confirmar y delimitar mejor el alcance de la lesión (Figura 4). La intervención quirúrgica, que se desarrolló sin complicaciones, consistió en la resección de la lesión con anastomosis término-terminal cubital (Figura 5), y se remitieron muestras a Microbiología y a Anatomía Patológica. Los cultivos resultaron negativos. El estudio anatomopatológico reveló alteraciones estructurales de la pared vascular con presencia de un agregado plaquetar rodeado de un infiltrado leucocitario, todo ello compatible con el diagnóstico de pseudoaneurisma de la arteria cubital parcialmente trombosado y abcesificado (Figura 6).

La evolución del paciente fue favorable. A la semana se comprobó que la permeabilidad del vaso, conservándose los pulsos radial y cubital. Como única secuela temporal, persistieron las parestesias y disestesias en 4º y 5º dedo, que desaparecieron a las 12 semanas.

FIGURA 1

MASA PULSÁTIL EN EMINENCIA HIPOTENAR



DISCUSIÓN

Los pseudoaneurismas o aneurismas falsos se diferencian de los aneurismas verdaderos en que los primeros presentan una pared compuesta de tejido fibroso en lugar de los componentes de la pared arterial normal¹.

Los pseudoaneurismas de arterias periféricas son poco habituales, siendo más frecuentes en miembros inferiores. Cuando aparecen en miembros superiores, la arteria cubital es la más frecuentemente afectada, especialmente a su paso por el canal de Guyon y en la eminencia hipotenar. El principal factor causal en relación con el desarrollo de estas lesiones sobre la arteria cubital son los traumatismos, bien

FIGURA 2

ECOGRAFÍA: DILATACIÓN DE LA ARTERIA CUBITAL

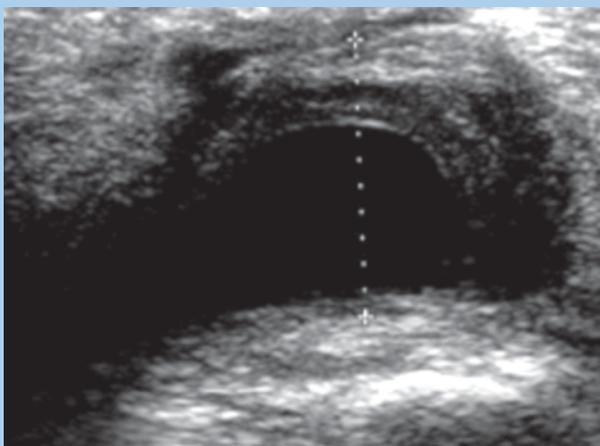
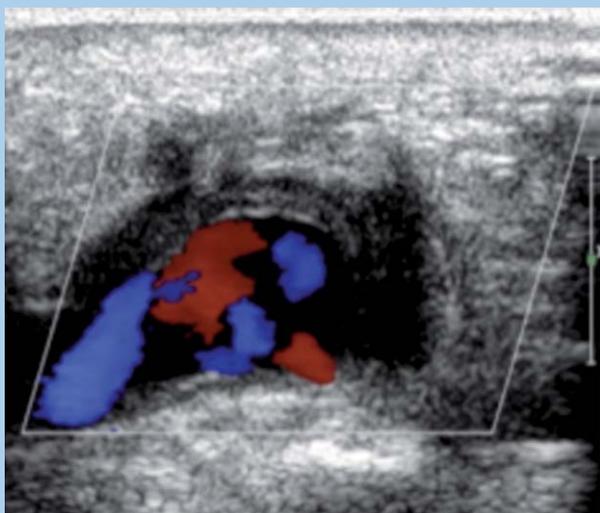


FIGURA 3

ECOGRAFÍA DOPPLER



en forma de traumas menores repetidos o como un único traumatismo directo, en una región donde la arterial cubital es más vulnerable y puede recibir el impacto del gancho del hueso ganchoso. Tal es el caso del síndrome del martillo hipotenar, descrito en 1772 por Guttani², y más frecuente en varones de edad media que desempeñan trabajos manuales³. Otros factores causales cuya importancia relativa ha aumentado durante los últimos años son los accesos vasculares⁴ para hemodiálisis, cateterismos, venopunciones, cirugía, así como las lesiones por aplastamiento y las infecciones micóticas⁵.

neurisma de aorta torácica en un paciente diagnosticado de Espondilitis Anquilosante, pero éste se relacionó con un traumatismo de raquis¹¹.

Clínicamente, la lesión suele manifestarse como una masa palpable y pulsátil en la región hipotenar. En caso de complicaciones como la trombosis y/o la embolización a las arterias interdigitales, puede haber dolor, intolerancia al frío, cianosis, e incluso fenómeno de Raynaud afectando a los dedos trifalángicos, pero no al primer dedo⁷. Si la isquemia no se resuelve, puede aparecer ulceración y necrosis digital⁸. La com-

Como único factor predisponente nuestro paciente refería el uso habitual de la eminencia hipotenar de la mano derecha como punto de apoyo de su iPad. Esta asociación no está descrita en la literatura. Sí está descrita la asociación entre el uso excesivo de dispositivos electrónicos, como iPad o Blackberry, con la aparición de lesiones como la tenosinovitis de De Quervain, síndrome de túnel carpiano o patología compresiva del nervio cubital⁶. No hemos hallado en la literatura ninguna evidencia que avale una hipotética asociación entre la Espondilitis Anquilosante y la aparición de la lesión pseudoaneurismática en nuestro paciente a excepción de un único caso de pseudoa-

presión del nervio cubital, cuando aparece, puede producir síntomas sensitivos (hipoestesia y parestesias en el 5º dedo y la mitad cubital del 4º) y motores (parálisis de los músculos intrínsecos con presencia de garra cubital y atrofia de músculos interóseos). Otras complicaciones pueden ser la ruptura del pseudoaneurisma, con hemorragia contenida o no, pudiendo fistulizar o dar lugar a un síndrome compartimental.

Los pseudoaneurismas pueden también infectarse. Los agentes más frecuentemente implicados en estos casos son *Staphylococcus Aureus*, *Streptococcus spp*, *Escherichia Coli*, *Salmonella* y *Pseudomonas*⁹. Esta complicación se ha descrito con más frecuencia en pacientes adictos a drogas por vía parenteral, en pacientes inmunocomprometidos afectos de enfermedades malignas, cirrosis hepática, Diabetes Mellitus, Lupus Eritematoso Sistémico, infección por VIH, pacientes en tratamiento crónico con glucocorticoides o fármacos inmunosupresores, y en pacientes en edades extremas de la vida.

En el caso de nuestro paciente, puede hablarse de la coincidencia de dos complicaciones, la trombosis y la infección. La trombosis es una complicación no infrecuente de estas lesiones, sin embargo, no podemos descartar una posible asociación a la presencia de anticoagulante lúpico (ACL) en la sangre de nuestro paciente. Por otro lado, se ha estudiado la posible asociación entre la positividad del ACL y la aparición de lesiones vasculares aneurismáticas. En 1995, Fligelstone y cols.¹² evidenciaron en un estudio de cohortes la alta prevalencia de ACL en pacientes con isquemia crítica, claudicación vascular y en pacientes tributarios de cirugía de aneurismas de aorta abdominal. Por otro lado, Wallace y cols.¹³ publicaron en 2013 un caso de tromboembolismo pulmonar y aneurisma de vena axilar en un varón de 22 años con varias determinaciones positivas previas de ACL. No hay casos descritos de la asociación entre ACL y la aparición de pseudoaneurismas. En cuanto a la infección de la lesión, nuestro paciente no recibía fármacos inmunosupresores y tampoco podemos considerar la Espon-

dilitis Anquilosante como una patología que “per se” pueda aumentar el riesgo de infección.

La ecografía-Doppler permite un diagnóstico de forma no invasiva, por lo que es muy útil como primera aproximación; mientras que las pruebas de referencia para la planificación preoperatoria son la arteriografía (método tradicional) y el angio-TC (menos invasivo y más económico)⁷.

La mayoría de los expertos avalan el tratamiento quirúrgico para los pseudoaneurismas de la mano¹⁴. Las técnicas endovasculares (embolización o endoprótesis) se reservan para pacientes hemodinámicamente inestables y que requieran una intervención urgente. En general se opta por cirugía abierta. Si hay buena compensación por parte de la circulación colateral, se opta por resección del pseudoaneurisma y ligadura de los cabos arteriales. En caso contrario, se aconseja la exéresis del aneurisma con reconstrucción arterial, bien sea con reparación término-terminal sin tensión o mediante interposición de injerto venoso¹⁵. Cuando exista infección local, el tratamiento debe combinar el abordaje quirúrgico y la antibioterapia prolongada¹⁰. En caso de pseudoaneurismas ya trombados o con clínica de isquemia digital se puede intentar tratamiento conservador con antiagregación y prostaglandinas¹⁶.

CONCLUSIÓN

Ante la aparición de una masa dolorosa en eminencia hipotenar, tras descartarse afectación articular o tendinosa, así como proceso celulítico, debe sospecharse la presencia de una lesión aneurismática o pseudoaneurismática de la arteria cubital. Siempre deberemos descartar la posibilidad de complicaciones como trombosis o infección, especialmente en pacientes inmunocomprometidos o que asocien cualquier tipo de trombofilia. La ecografía-Doppler permite un diagnóstico inmediato de la lesión, aunque luego debe confirmarse mediante angiografía y/o angio-TC. El tratamiento de elección es quirúrgico, y debe ejecutarse de modo precoz para evitar la aparición de complicaciones.

FIGURA 4

ANGIO-TC CONFIRMA LA LESIÓN



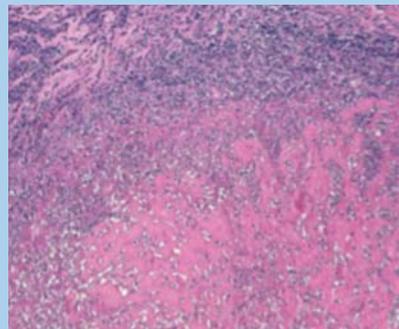
FIGURA 5

EXÉRESIS DEL PSEUDOANEURISMA
CORTESÍA DR. TORRES (CIRUGÍA VASCULAR)



FIGURA 6

ANATOMÍA PATOLÓGICA
CORTESÍA DRA. SORIANO (A.P.)



BIBLIOGRAFÍA

- 1.- Marsal MT, Del Blanco AI, Azcona EJM. Aneurismas distales. En: Estevan-Solano JM. Tratado de aneurismas. Barcelona. Uriach. 1997:475-93.
- 2.- Guttani C. De externis aneurysmatibus manu chirurgica methodice pertractandis, 1772. Citado en: Erichsen Je, trans-ed. Observations on Aneurysm. London: Sydenham Society 1884:316-8.
- 3.- Timothy Ablett C, et al. Hypothenar hammer syndrome: Case Reports and Brief Review. Clinical Medicine and Research 2008;6:3-8.
- 4.- Rial Horcajo R, Moñux Ducajú G. Tratado de las enfermedades vasculares. Vol II. Barcelona: Viguera editores; 2006. p. 879-89.
- 5.- Albaladejo F, Sánchez P, Hernández M, Redondo M. Parálisis cubital aguda producida por pseudoaneurisma de la arteria cubital en el canal de Guyon. Revista Iberoamericana de Cirugía de la Mano 2013;41:46-52.
- 6.- Angulo-Mendaz JM. Medio informal de comunicación. Blackberry como medio masivo. Revista Schema 2012;2:136-151.
- 7.- Villalba-Munera V, Vázquez-Medina C. Síndrome del martillo hipotenar con aneurisma de la arteria cubital. Angiología 2009;61:265-9.
- 8.- Yuen JC, Wright E, Johnson LA, Culp WC. Hypothenar hammer syndrome: an update with algorithms for diagnosis and treatment. Ann Plast Surg 2011;67:429-38.
- 9.- Redondo M, Serrano JL, Navarrete N, Sabio

- JM. Pseudoaneurisma micótico por Salmonella Enteritidis en paciente con fiebre de origen desconocido. Medicina Intensiva 2013;37:365366.
- 10.- Man Fung Ho, Yiu-Che Chan, Wing-Keung Chen. Management of mycotic femoral artery aneurysm with two resistant organisms. Asian Cardiovascular and Thoracic Annals 2014;22:742.
- 11.- Lifshutz J, Lidar Z, Maiman D. Thoracic aortic pseudoaneurysm after spine trauma in ankylosing spondylitis. Case report. J Neurosurg Spine 2005;2:218-21.
- 12.- Fligelstone LJ, Cachia PG, Ralis H. Lupus anticoagulant in patients with peripheral vascular disease: a prospective study. Eur J Vasc Endovasc Surg 1995;9:277-83.
- 13.- Wallace JR, Baril DT, Chaer RA. Upper extremity venous aneurysm as a source of pulmonary emboli. Ann Vasc Surg 2013;2:240.
- 14.- Anderson SE, et al. Imaging feature of pseudoaneurysms of the hand in children and adults. American Journal of Roentgenology. 2003;180:659-64
- 15.- Koman A, et al. Trastornos vasculares. En: Green's. Cirugía de la mano. Madrid: Marbán: 2007; p. 2265-313.
- 16.- González-Martínez, P, Salazar-Agorria A, Bravo-Ruiz E, Suárez-Tornin MJ, Vega-Manrique R. Pseudoaneurisma de arteria cubital después de cirugía de túnel del carpo. Angiología 2012;64:280-86.