

Caso clínico

Estimulación de cordones posteriores en adolescente con síndrome de dolor regional complejo por enfermedad de Lyme. Reporte de un caso

Mejía-Terrazas GE,* López-Ruiz VG,** Infante-Cosío G,*** Carapia-Sadurni A,****
Hernández-Méndez-Villamil E*****

Instituto Nacional de Rehabilitación

RESUMEN. La enfermedad de Lyme es una enfermedad emergente presente en México, productora de cuadros de dolor musculoesquelético o bien neurótico de difícil control. Se presenta el caso de una adolescente con síndrome de dolor regional complejo secundario a la misma de miembro pélvico donde se instauró un manejo multidisciplinario que finalmente se controló con la colocación de un estimulador de cordones posteriores, situación inusual en un adolescente, así como su evolución por 60 meses, ya que en la literatura sólo se encuentra reportada en pocos casos.

Palabras clave: Síndrome de dolor regional complejo, enfermedad de Lyme, estimulación de cordones posteriores, dolor neuropático.

ABSTRACT. Lyme disease is an emerging pathology in Mexico, producer of painful muscle skeletal either neurotic pain difficult to control. We present the case of a teenager girl who has complex regional pain type II of pelvic limb secondary to it, where it established a multidisciplinary management that finally was controlled with the placement of a spinal cord stimulator. We consider this as an unusual situation in an adolescent, as well as its evolution by 60 months where the literature only was reported in a few cases.

Key words: Complex regional pain syndrome, Lyme disease, spinal cord stimulation, neuropathic pain.

Introducción

La enfermedad de Lyme o borreliosis de Lyme es una enfermedad infecciosa emergente muy importante en Norteamérica y Europa. El agente causal es *Borrelia burgdorferi*, el cual es transmitido por la mordedura de garrapata del género *Ixodes*.^{1,2} En México, en 1991, se reportaron los primeros casos sugestivos de eritema crónico migratorio.³ En 1999 se reportó la Encuesta Seroepidemiológica Nacional, donde se detectó positividad por ELISA de 1.1% con confirmación por inmunoensayo de 0.3%.^{4,5} En el mismo año fueron descritos los primeros casos sugestivos de pacientes con manifestaciones neurológicas en la Ciudad de México.⁶ Pero fue hasta 2007 cuando se confirmaron los primeros casos de enfermedad cutánea y neurológica en el país.⁷ La asociación entre síndrome de dolor regional complejo y enfermedad de Lyme no es una situación nueva: desde hace algunos años se han reportado casos sobre una posible asociación entre ambas,^{8,9} o como una posible causa del síndrome¹⁰ debido a que se sugiere, por lo menos parcialmente, que la respuesta inflamatoria exagerada que se presenta en

* Jefe de la Clínica del Dolor y Cuidados Paliativos del Instituto Nacional de Rehabilitación.

** Adscrita a la Clínica del Dolor del Hospital General de Ensenada, Baja California.

*** Adscrita a la División de Anestesiología del Instituto Nacional de Rehabilitación.

**** Adscrita al Servicio de Intervención Psicológica Hospitalaria, Hospital Ángeles Pedregal.

***** Adscrito al Servicio de Ortopedia del Hospital General «Dr. Enrique Cabrera» y del Hospital Ángeles México.

Dirección para correspondencia:
Dr. Gabriel E Mejía Terrazas
Instituto Nacional de Rehabilitación.
Av. México-Xochimilco Núm. 289,
Col. Arenal de Guadalupe, CP 011400,
Delegación Tlalpan, México, D.F.
Teléfono: 5999 1000, ext. 11226 y 11219.
Fax: 5271 6138.
E-mail: gisibyg@yahoo.com.mx

Este artículo puede ser consultado en versión completa en <http://www.medigraphic.com/actaortopedica>

este cuadro de dolor crónico neuropático puede tener una base autoinmunitaria y este tipo de infecciones incrementan la inmunoreactividad, principalmente después de una infección por espiroquetas.¹¹ Para el diagnóstico se debe tener una historia de dolor característico, así como sintomatología sensorial y los cambios electromiográficos y radiológicos típicos.¹⁰ Algunos reportes sugieren que se debe tener presente como un diagnóstico diferencial en los pacientes con dolor de difícil control.^{8,9,10} En este caso, se presenta la evolución durante 60 meses de un paciente adolescente que requirió estimulación de cordones posteriores para el manejo del dolor crónico debido a esta enfermedad.

Reporte de caso

Adolescente de 15 años que presentaba dolor de dos años de evolución en la pierna derecha a nivel del tobillo, de tipo ardoroso, quemante, irradiado desde la rodilla hasta el pie, con una intensidad inicial de dos y actual de 10 puntos, alodinia de la región maleolar y, además, movimientos involuntarios de los dedos primero y segundo, así como dolor a la flexión y extensión del tobillo, edema periarticular, sin fiebre ni *rash* y con el antecedente de enfermedad de Lyme (Western-Blot IgG versus *Borrelia burgdorferi* en suero positivo, en LCR negativo); el resto de la exploración física sin datos anormales. La exploración neurológica mostró alodinia térmica dinámica, así como hiperpatía en todo el pie y tobillo, reflejo aquileo aumentado, flexión y extensión del tobillo disminuidas y dolorosas; la valoración ortopédica sin concluir patología osteoarticular, por lo que se envió a clínica del dolor, donde se diagnosticó como «síndrome de dolor regional complejo tipo II» debido al cuadro clínico y electromiográfico (Tabla 1). Se inició tratamiento farmacológico y de terapia física y ocupacional, sin respuesta favorable. La valoración psicológica reportó adolescente con excesos cognitivos como sobregeneralización, *locus* de control externo, catastrofización, déficits conductuales: dificultad en habilidades de comunicación y adherencia terapéutica; esto último había sido reforzado por los padres. Se inició terapéutica con los componentes de relación, psicoeducación y sensibilización de su padecimiento, reestructuración cognitiva y autorregulación, habilidades de comunicación, solución de problemas y moldeamiento. Se inició protocolo para estimulación de cordones posteriores

con prueba de colocación de electrodo octapolar (*Octrode* de *Advanced Neuromodulation Systems*) de forma percutánea, a nivel de T10-T12 utilizando los electrodos 3+ y 4- con 30 Hz de frecuencia, 150 ms de ancho de pulso, 8-14 mA de tolerancia a través de la plataforma computarizada de programación (*Rapid Programmer* de *Advanced Neuromodulation Systems*), el cual se mantuvo por siete días de forma ambulatoria y seguimiento telefónico diario, con resultado positivo, ya que el dolor se mantuvo controlado en un EVA de 1 a 2 puntos durante sus actividades cotidianas. Se realizó implante definitivo con electrodo octapolar (*Octrode* de *Advanced Neuromodulation Systems*) a nivel de T10-T12; se implantó generador Eon (*Advanced Neuromodulation Systems*). La intensidad del dolor después del implante fue de EVA 1 a 2. Seguimiento: 60 meses, donde ha presentado cuatro exacerbaciones. La primera se resolvió agregando tramadol de liberación controlada 100 mg cada 12 horas y antibioticoterapia por siete días. La segunda se debió a que durante el seguimiento la paciente ha continuado con su crecimiento axial, de aproximadamente tres centímetros, con lo que el electrodo se ha desplazado aproximadamente 150 mm (Figura 1), por lo que se tuvieron que modificar los parámetros de estimulación, donde el electrodo positivo se cambió a 1+ 2-; el resto de los parámetros no se modificaron. La tercera y cuarta exacerbaciones se presentaron de forma espontánea con una diferencia de 12 meses entre cada una y requirieron de hospitalización para utilizar opioides intravenosos, con adecuada respuesta después de tres días; en ambas no se modificó la programación y se continuó con la medicación establecida antes del episodio. En general, el control del dolor ha sido muy aceptable, aunque el generador está encendido las 24 horas del día, ya que si lo apaga, el dolor se incrementa.

Discusión

La enfermedad de Lyme está presente en México debido a que se ha demostrado la presencia del vector, huéspedes intermediarios infectados por *Borrelia* spp., así como casos clínicos sospechosos, principalmente en las zonas del noreste y de la Ciudad de México, aunque no está considerado actualmente una zona endémica. De acuerdo con los estudios de la Dra. Gordillo, la prevalencia es elevada y se debe llamar la atención del personal

Tabla 1. Datos electromiográficos previos al implante.

Primera electromiografía y velocidades de conducción nerviosa de miembros pélvicos	Segunda electromiografía y velocidades de conducción nerviosa de miembros pélvicos
2009. Patrón de denervación y reinervación con mínima estabilidad de membrana muscular residual para músculos inervados por nervios tibial y peroneal, sugiere compromiso local con degeneración axonal troncular en hueso poplíteo. Velocidades de conducción nerviosa normales.	2010. Discreta axonopatía del nervio peroneo derecho en su segmento rodilla-tobillo y patrón de denervación-reinervación crónica en músculos inervados. Al comparar con estudio previo hay mejor integración de respuestas motoras. Ambos sugestivos de un SDRC de pequeñas fibras.
SDRC = síndrome de dolor regional complejo.	

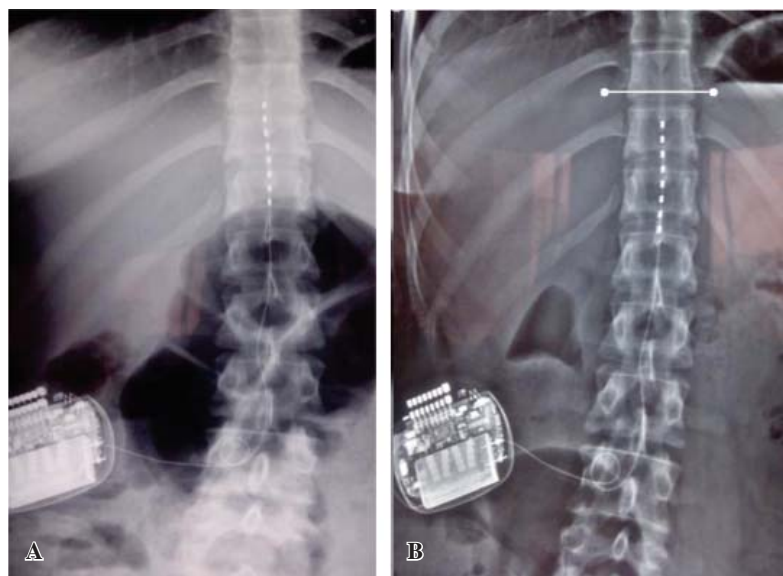


Figura 1.

A) Control radiográfico inicial al momento de haber colocado el implante. B) Placa tomada 48 meses después, donde se marca con una línea el sitio inicial del implante y se observa la distancia de desplazamiento del mismo.

de salud sobre la presencia de la enfermedad.¹² El caso que presentamos tiene concordancia con otros reportes de la enfermedad donde los sujetos no habían viajado fuera del país;^{7,13} misma situación de nuestra paciente, que al parecer sólo realizó un viaje a un campamento en el bosque en el estado de Michoacán, donde probablemente adquirió la enfermedad. Hasta una tercera parte de los individuos infectados cuenta con una edad menor a 18 años y el grupo etario de mayor riesgo es el comprendido entre los 5 y 14 años.¹¹

Dentro de las características manifestaciones neurológicas se encuentra la neuropatía periférica (neuropatía axonal crónica). Se presentan parestesias, dolor radicular poco común y déficit sensitivo, aunque es raro; la fuerza muscular y los reflejos tendinosos están conservados. Generalmente no hay meningitis o neuritis craneal. Los anticuerpos en suero contra *B. burgdorferi* son positivos. La electromiografía muestra neuropatía axonal leve, LCR normal sin anticuerpos intratecales; la biopsia del nervio sural muestra pérdida axonal distal e infiltrado perivascular sin depósitos de complejos inmunes: no se observa *B. burgdorferi* en el nervio.^{14,15}

En nuestra paciente se llevó a cabo el diagnóstico al encontrar anticuerpos contra *B. burgdorferi* en suero, aunque en LCR no se haya hecho presente debido a que ya había terminado el tratamiento antibiótico. En cuanto a su cuadro doloroso, éste persistió aun después de que terminara la terapia antibiótica, situación que se presenta en 10 a 15% de pacientes y es difícil de tratar. El manejo farmacológico se inició con gabapentina; de acuerdo con el trabajo Weisenbacher,¹⁶ su utilización como monoterapia en pacientes que presentan dolor neuropático secundario a neuroborreliosis tiene una respuesta favorable en 90% de los casos, con una disminución del dolor de al menos 50%, iniciando con una dosis de 300 mg/día y utilizando una dosis media de 700 mg/día. En nuestra paciente la respuesta no fue fa-

vorable a pesar de utilizar 1,200 mg/día. Tampoco tuvo una respuesta favorable al uso de morfina y, además, se limitó la dosis por importantes efectos adversos digestivos. Por ello se decidió la colocación de estimulador de cordones posteriores.

En nuestro país no hay experiencia en el manejo del dolor por enfermedad de Lyme, pero en una revisión crítica de la literatura optamos por seguir lo reportado por Mearini,¹⁷ donde implantan un estimulador a un paciente adulto con la misma patología y tienen un buen resultado a lo largo del tiempo; éste es el primer reporte de caso sobre este procedimiento. Antes de implantarlo, valoramos su situación psicológica debido a que es una adolescente. Con la intervención psicológica se tuvo una buena respuesta, pues se pudo controlar y modificar la idea irracional del proceso cognitivo; a pesar de presentar catastrofización del dolor, tuvo una buena aceptación; debido a esto, se decidió la colocación del estimulador. Lamé¹⁸ reporta que las ideas de catastrofización del dolor no impiden la colocación de este tipo de implantes y no van a afectar el resultado final en cuanto al control del dolor. La estimulación de cordones posteriores ha sido estudiada ampliamente para el manejo del dolor crónico neuropático, principalmente en adultos; incluso los reportes antes mencionados son en pacientes adultos. Por ello, el punto central de este caso es la edad de la paciente al momento de colocar el implante: en ese momento tenía 15 años y una estatura de 1.50 m; durante el seguimiento (60 meses) ha aumentado 3 cm, con lo que su edad actual es de 20 años y su estatura de 1.53 m; desde hace 12 meses ya no ha habido cambio de dicha medida, por lo que suponemos que ya terminó su etapa de crecimiento. Con este cambio de talla hubo un desplazamiento del electrodo, pero no tan grande como para requerir, por el momento, una recolocación; sin embargo, sí cambió de programación debido a que el electrodo que inicialmente estaba estimulando se alejó de la zona requerida, por lo que se tuvo que modifi-

car. El reporte de Olsson¹⁹ describe seis adolescentes y sus dificultades técnicas con los casos, pero no menciona nada sobre los efectos del crecimiento sobre la localización de los electrodos; en sus casos pudo retirar la estimulación, pero en nuestro caso esto no ha sido posible. Concluimos que la estimulación de cordones posteriores puede ser efectiva para mitigar el dolor de difícil control en pacientes adolescentes con enfermedad de Lyme.

Conflicto de intereses: Los autores declaran que no tienen.

Bibliografía

1. Pfister HW, Wilske B, Weber K: Lyme borreliosis: basic science and clinical aspects. *Lancet*. 1994; 343: 1013-6.
2. Hildenbrand P, Craven D, Jones R, Nemeskal P: Lyme neuroborreliosis: manifestations of a rapidly emerging zoonosis. *Am J Neuroradiol*. 2009; 30: 1079-87.
3. Arroyave CM, Támez GR: Enfermedad de Lyme. Informe de dos casos. *Bol Med Hosp Infant Mex*. 1994; 51: 117-20.
4. Gordillo-Pérez G, Solórzano S, Torres L, Cedillo R, Tapia C, Muñoz H: Serological evidence of Lyme disease in Mexico. *Arch Med Res*. 1999; 30: 64-8.
5. Martínez A, Salinas A, Martínez F, Cantú Z, Miller DK: Serosurvey for selected disease agents in white-tailed deer from Mexico. *J Wildlife Dis*. 1999; 35: 799-803.
6. Gordillo-Pérez G, Torres J, Solórzano-Santos F, Garduño-Bautista V, Tapia-Conyer R, Muñoz F: Estudio seroepidemiológico de borreliosis de Lyme en la Ciudad de México y el noreste de la República Mexicana. *Salud Publica Mex*. 2003; 45: 351-5.
7. Gordillo-Pérez G, Torres J, Solórzano-Santos F, De Martino S, Lipsker D, Velázquez E, et al: *Borrelia burgdorferi* infection and cutaneous Lyme disease, Mexico. *Emerg Infect Dis*. 2007; 13: 1556-8.
8. Neumann RA, Aberer E, Stanek G: Evidence for spirochetal origin of Sudeck's atrophy (algodystrophy, reflex sympathetic dystrophy). *Arch Orthop Trauma Surg*. 1989; 108: 314-6.
9. Bruckbauer HR, Preac-Mursic V, Herzer P, Hofmann H: Sudeck's atrophy in Lyme borreliosis. *Infection*. 1997; 25: 372-6.
10. Sibanc B, Lesnicar G: Complex regional pain syndrome and Lyme borreliosis: two different diseases? *Infection*. 2002; 30: 396-9.
11. De Mos M, Sturkenboom MC, Huygen FJ: Current understandings on complex regional pain syndrome. *Pain Pract*. 2009; 9(2): 86-99.
12. Gordillo-Pérez G, Solórzano F: Enfermedad de Lyme. Experiencia en niños mexicanos. *Bol Med Hosp Infant Mex*. 2010; 67: 164-76.
13. Vargas M: Enfermedad de Lyme en México. *Salud Publica Mex*. 1993; 5: 435-6.
14. Pachner A, Steere A: The triad of neurologic manifestations of Lyme disease: meningitis, cranial neuritis, and radiculoneuritis. *Neurology*. 1985; 35: 47-53.
15. Halperin J, Little W, Coyle P, Dattwyler R: Lyme disease: cause of a treatable peripheral neuropathy. *Neurology*. 1987; 37: 1700-6.
16. Weissenbacher S, Ring J, Hofmann H: Gabapentin for the symptomatic treatment of chronic neuropathic pain in patients with late-stage Lyme borreliosis: a pilot study. *Dermatology*. 2005; 211: 123-7.
17. Mearini M, Podetta S, Catenacci E, d'Auria P, Cornali C, Mortini P: Spinal cord stimulation for the treatment of upper and lower extremity neuropathic pain due to Lyme disease. *Neuromodulation*. 2007; 10(2): 142-7.
18. Lamé IE, Peters ML, Patijn J, Kessels AG, Geurts J, van Kleef M: Can the outcome of spinal cord stimulation in chronic complex regional pain syndrome type I patients be predicted by catastrophizing thoughts?. *Anesth Analg*. 2009; 109(2): 592-9.
19. Olsson GL, Meyerson BA, Linderöth B: Spinal cord stimulation in adolescents with complex regional pain syndrome type I (CRPS-I). *Eur J Pain*. 2008; 12(1): 53-9.