



Artículo Aceptado para su pre-publicación / Article Accepted for pre-publication

Título / Title:

Pioderma gangrenoso, complicación infrecuente en la neuroestimulación medular. / Pyoderma Gangrenosum, undocumented complication of a spinal cord stimulation.

Autores / Authors:

Marco Aurelio Ramirez Huaranga, Monica Garcia Arpa, David Bellido Pastrana, Claudia Carolina Ramos Rodriguez, Iris Violeta De la Rocha Vedia, Carlos Alberto Jaramillo Tascon

DOI: [10.20986/resed.2019.3725/2019](https://doi.org/10.20986/resed.2019.3725/2019)

Instrucciones de citación para el artículo / Citation instructions for the article:

Ramirez Huaranga Marco Aurelio, Garcia Arpa Monica, Bellido Pastrana David, Ramos Rodriguez Claudia Carolina, De la Rocha Vedia Iris Violeta, Jaramillo Tascon Carlos Alberto. Pioderma gangrenoso, complicación infrecuente en la neuroestimulación medular. / Pyoderma Gangrenosum, undocumented complication of a spinal cord stimulation.. Rev. Soc. Esp. Dolor. 2019. doi: 10.20986/resed.2019.3725/2019.

Este es un archivo PDF de un manuscrito inédito que ha sido aceptado para su publicación en la Revista de la Sociedad Española del Dolor. Como un servicio a nuestros clientes estamos proporcionando esta primera versión del manuscrito en estado de pre-publicación. El manuscrito será sometido a la corrección de estilo final, composición y revisión de la prueba resultante antes de que se publique en su forma final. Tenga en cuenta que durante el proceso de producción se pueden dar errores lo que podría afectar el contenido final. El copyright y todos los derechos legales que se aplican al artículo pertenecen a la Revista de la Sociedad Española de Dolor.

PIODERMA GANGRENOSO, COMPLICACIÓN INFRECUENTE EN LA NEUROESTIMULACIÓN MEDULAR

PYODERMA GANGRENOSUM, UNDOCUMENTED COMPLICATION OF A SPINAL CORD STIMULATION

M. A. Ramírez Huaranga¹, M. García Arpa², D. Bellido Pastrana³, C. C. Ramos Rodríguez⁴, I. V. de la Rocha Vedia¹ y C. A. Jaramillo Tascón¹

¹Unidad de Tratamiento del Dolor Crónico. Hospital General Universitario de Ciudad Real, España. ²Dermatología. Hospital General Universitario de Ciudad Real, España. ³Medicina Interna. Hospital General Universitario de Ciudad Real, España. ⁴Patología. Hospital General Universitario de Ciudad Real, España

CORRESPONDENCIA:

Marco Aurelio Ramírez Huaranga

hurauma@hotmail.com

Recibido: 17-02-2019

Aceptado: 29-04-2019

RESUMEN

El pioderma gangrenoso (PG) es una enfermedad cutánea rara y dolorosa con una respuesta de tratamiento impredecible. Las lesiones son recurrentes y ocurren en áreas que han sufrido traumas previos. Algunos casos se han relacionado con diferentes tipos de cirugías y, por lo general, no se diagnostican correctamente y se clasifican erróneamente como un proceso infeccioso. La implantación de un sistema de neuroestimulación es un procedimiento quirúrgico con varias complicaciones posibles, generalmente infecciosas, pero también no infecciosas, como reacciones de hipersensibilidad, pero no hay una descripción de la PG.

Presentamos un paciente con un síndrome de dolor regional complejo posquirúrgico en ambos pies que desarrolla una lesión necrótica, pustulosa, eritematosa y dolorosa

después del implante de un sistema de neuroestimulación medular que se diagnosticó como PG y se trató correctamente gracias a un enfoque multidisciplinario.

Palabras clave: Pioderma gangrenoso, dermatosis neutrofilica, neuroestimulación medular, complicaciones quirúrgicas.

ABSTRACT

Pyoderma gangrenosum (PG) is a rare and painful skin disease with unpredictable treatment response. The lesions are recurrent and occur in areas that have suffered previous trauma. Some cases have been related to different types of surgeries and it is usually underdiagnosed and erroneously classified as an infectious process. The implantation of a neurostimulation system is a surgical procedure with several possible complications, usually infectious but also non-infectious such as hypersensitivity reactions but there is no description of PG.

We report a patient with a post-surgical complex regional pain syndrome in both feet that develops a necrotic, pustular, erythematous and painful lesion after the implantation of a spinal cord stimulation which was diagnosed as PG and correctly treated thanks to a multidisciplinary approach.

Keywords: Pyoderma gangrenosum, neutrophilic dermatosis, spinal cord stimulation, surgical complications.

INTRODUCCIÓN

El pioderma gangrenoso (PG) es una enfermedad rara, dolorosa, de difícil diagnóstico y con una respuesta impredecible al tratamiento. Se caracteriza por la presencia de pústulas eritematosas simples o múltiples que progresan rápidamente a úlceras necróticas con un borde violeta deprimido. Tiene una incidencia de 2-3/1.000.000 personas-año y ocurre con mayor frecuencia entre la tercera y quinta década de la vida con predominio del sexo femenino. Los tratamientos habituales son corticoides e

inmunosupresores, generalmente ciclosporina (1,2). Entre el 50 y el 70 % están asociadas con enfermedades sistémicas inflamatorias, sin embargo, en una publicación de Ruocco y cols. describieron la presencia de PG idiopática en el 25 % de los casos (3). Las lesiones típicas son recurrentes y en el 50% de los casos ocurren en áreas que han sufrido traumas previos, proceso conocido como fenómeno de Patergia (4). Histológicamente es una dermatosis neutrofílica (5). Un grupo de casos descritos en la literatura se han relacionado con diferentes tipos de cirugías y, por lo general, se diagnostica de forma incorrecta y se clasifica erróneamente como un proceso infeccioso. Por lo tanto, el reconocimiento temprano de esta entidad evitará limpiezas quirúrgicas innecesarias que terminan empeorando la lesión. En pacientes con antecedentes de Pioderma gangrenoso, se recomienda una intervención rápida y menos traumática con incisiones pequeñas, suturas sin mucha tensión y tratamiento profiláctico con corticoides y ciclosporina (3,6,7).

CASO CLÍNICO

Mujer de 48 años, con antecedentes de hipotiroidismo autoinmune, intervenciones quirúrgicas múltiples y artrodesis por pie cavo y dedos en martillo. Después de estas cirugías presentó una aparente infección postquirúrgica que fue tratada con múltiples esquemas de antibióticos (ATB) con escasa respuesta y cultivos negativos, por lo que fue catalogado como posible rechazo al material de osteosíntesis y se decidió retirarlo. Todas estas cirugías causaron un síndrome de dolor regional complejo con dolor neuropático crónico en ambos pies con un EVA entre 8-9/10 y una limitación funcional secundaria al dolor y múltiples cicatrices quirúrgicas. Se pautó secuencialmente pregabalina, opioides menores y mayores a dosis medias-altas sin control analgésico, por lo que se realizó radiofrecuencia pulsada del nervio ciático con un alivio del 80% (EVA 1-2/10) de 3-4 meses de duración. Finalmente, se implantó un sistema de neuroestimulación medular, consiguiendo una mejoría clínica muy significativa y mantenida (EVA 1/10). Sin embargo, 4 días después del implante, desarrolló una lesión necrótica, pustulosa, eritematosa y dolorosa en el área quirúrgica lumbar con elevación de reactantes de fase aguda. Se trató inicialmente como una infección

quirúrgica, se tomaron varias muestras para el cultivo y biopsias, se realizó una limpieza quirúrgica de la herida y se estableció ATB de amplio espectro, pero, a pesar de esto, las lesiones progresaron. Por lo tanto, ante la mala respuesta, los resultados negativos de los cultivos, el infiltrado inflamatorio neutrofílico y la necrosis observada en las biopsias de piel, se consideró la posibilidad de Pioderma gangrenoso. En consenso multidisciplinario se decidió interrumpir el ATB e iniciar corticoides (prednisona) a 0,5 mg/kg/día con una rápida mejora analítica y clínica de la lesión (Figura 1). Se realizó un estudio completo, excluyendo la presencia de enfermedades inflamatorias sistémicas, vasculitis o procesos linfoproliferativos. Al iniciar con la reducción de corticoides (< 20 mg prednisona/día), aparecieron nuevas lesiones en diferentes áreas (región maleolar, antebrazo, manos y cuello) con dolor intenso (EVA 9/10) (Figura 2). Por lo que se asoció al tratamiento del PG varios tipos de inmunosupresores de forma secuencial (metotrexato, ciclosporina, infliximab, adalimumab, ustekinumab, gammaglobulinas y finalmente anakinra). Con este último tratamiento y la retirada del Sistema de neuroestimulación se consiguió la desaparición progresiva de todas las lesiones inflamatorias de la piel. Actualmente, la paciente se mantiene estable con tratamiento inmunosupresor (anakinra y corticoides a dosis bajas), tramadol/paracetamol y radiofrecuencia pulsada del nervio ciático periódicamente cada 4 meses.

DISCUSIÓN

Las complicaciones inflamatorias no infecciosas descritas después de la implantación de un sistema de neuroestimulación están infradiagnosticadas (0,1%), principalmente porque se incluyen en el diagnóstico diferencial de las complicaciones (8,9). Las más habituales son las reacciones de hipersensibilidad, estas pueden manifestarse como dermatitis de contacto, reacciones granulomatosas y reacciones a cuerpos extraños con formación de células gigantes. En estos casos, el estudio histológico será esencial para diferenciar una respuesta inflamatoria de un proceso infeccioso y el tratamiento definitivo consistirá en la retirada del sistema (10,11). Sin embargo, hasta la fecha de la revisión, no hay nada publicado sobre la aparición de un Pioderma gangrenoso

después del implante de un sistema de neuroestimulación medular. En el presente caso, esto fue el factor desencadenante de la activación de una enfermedad inflamatoria de la piel que se perpetuó con muchos brotes cutáneos dolorosos hasta que se consiguió un tratamiento inmunosupresor efectivo y se retiró el sistema. Probablemente, las lesiones cutáneas iniciales después de las cirugías de los pies también podrían haber sido una manifestación de PG, pero no será posible saberlo porque no se realizó una biopsia de las lesiones.

Concluimos que la implantación de un sistema de neuroestimulación medular fue el desencadenante de una enfermedad inflamatoria de la piel que se diagnosticó y trató correctamente gracias a un abordaje multidisciplinario.

AGRADECIMIENTOS

Agradecimiento a la dedicación de todo el equipo multidisciplinario de la Unidad del dolor.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores de este artículo manifiestan que no han recibido ningún tipo de apoyo financiero ni presentan algún tipo de conflicto de interés.

BIBLIOGRAFÍA

1. Reichrath J, Bens G, Bonowitz A, Tilgen W. Treatment recommendations for pyoderma gangrenosum: an evidence-based review of the literature based on more than 350 patients. *J Am Acad Dermatol.* 2005;53(2):273-83. DOI: 10.1016/j.jaad.2004.10.006.
2. Miller J, Yentzer BA, Clark A, Jorizzo JL, Feldman SR. Pyoderma gangrenosum: a review and update on new therapies. *J Am Acad Dermatol.* 2010;62(4):646-54. DOI: 10.1016/j.jaad.2009.05.030.

3. Ruocco E, Sangiuliano S, Gravina AG, Miranda A, Nicoletti G. Pyoderma gangrenosum: an up dated review. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2009;23(9):1008-17. DOI: 10.1111/j.1468-3083.2009.03199.x.
4. Ahronowitz I, Harp J, Shinkai K. Etiology and management of pyoderma gangrenosum: a comprehensive review. *Am J Clin Dermatol* 2012;13(3):191-211. DOI: 10.2165/11595240-000000000-00000.
5. Su WP, Davis MD, Weenig RH, Powell FC, Perry HO. Pyoderma gangrenosum: clinic pathological correlation and proposed diagnostic criteria. *Int J Dermatol* 2004;43(11):790-800. DOI: 10.1111/j.1365-4632.2004.02128.x.
6. Cozzani E, Gasparini G, Parodi A. Pyoderma gangrenosum: a systematic review. *G Ital Dermatol Venereol.* 2014;149(5):587-600.
7. Zuo KJ, Fung E, Tredget EE, Lin AN. A systematic review of post-surgical pyoderma gangrenosum: Identification of risk factors and proposed management strategy. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2015;68(3):295-303. DOI: 10.1016/j.bjps.2014.12.036.
8. Bendersky D, Yampolsky C. Is spinal cord stimulation safe? A review of its complications. *World Neurosurg.* 2014;82(6):1359-68. DOI: 10.1016/j.wneu.2013.06.012.
9. Hoelzer BC, Bendel MA, Deer TR, Eldrige JS, Walega DR, Wang Z, et al. Spinal cord stimulator implant infection rates and risk factors: a multicenter retrospective study. *Neuromodulation.* 2017;20(6):558-62. DOI: 10.1111/ner.12609.
10. Delaplace M, Maître F, Dufour T, Landrieux I, Gauthier P, Jebira P, et al. Two cases of cutaneous erythema following spinal cord stimulation. *Ann Dermatol Venereol.* 2010;137(4):297-300. DOI: 10.1016/j.annder.2010.02.017.
11. Chaudhry ZA, Najib U, Bajwa ZH, Jacobs WC, Sheikh J, Simopoulos TT. Detailed analysis of allergic cutaneous reactions to spinal cord stimulator devices. *J Pain Res.* 2013;6:617-23. DOI: 10.2147/JPR.S44676.

Figura 1. A: lesión en la zona lumbar a los 4 días de la cirugía. B: lesión lumbar tras limpieza quirúrgica y antibioticoterapia. C: lesión tras el inicio de corticoterapia.



Figura 2. Afectación progresiva del Pioderma gangrenoso: A: ombligo, B: manos, C: Mama, D: cuello, E: dedos, F: rodilla, G: Lesión glútea sobre el generador, H: lesión tras retirada del generador. I: Estudio histológico donde se observa un infiltrado neutrofilico severo con necrosis dérmica superficial que afecta los folículos pilosos y se profundiza alcanzando el panículo adiposo. (HyE 4x), acercamiento del compromiso folicular.

