

Delirio de parasitosis en la esclerosis múltiple: una expresión enigmática de una enfermedad pleomórfica[☆]



Delusional parasitosis in multiple sclerosis: An enigmatic manifestation of a multifaceted disease

Sr. Editor:

La esclerosis múltiple (EM) es la enfermedad inflamatoria crónica más prevalente del sistema nervioso central (SNC), afectando a más de 2 millones de personas en todo el mundo¹. Los trastornos psicóticos ocurren en el 2-4% de los pacientes con EM^{2,3}, ocasionalmente al inicio, o más comúnmente, durante el curso de la enfermedad². Una forma particular de psicosis es el delirio de parasitosis (DP) o delirio de infestación, originariamente descrito por Karl Ekbom como delirio dermatozoico senil en 1938 (por ello también se denomina síndrome de Ekbom), una rara afección en la cual los individuos tienen la convicción abrumadora de estar infestados por parásitos, gusanos, bacterias, ácaros y/u otros organismos vivos⁴. Además, constituye un subtipo inusual de psicosis con inicio insidioso y origen inaclorado⁵. Se ha comunicado su asociación con formas avanzadas de EM, cuando existe una acumulación de lesiones a nivel temporal periventricular^{2,6,7}. Así pues, presentamos un caso atípico de EM primaria progresiva (EMPP) que probablemente desarrolló un DP secundario como epifenómeno de la actividad de la enfermedad.

Se trataba de un varón de 64 años con diagnóstico de EMPP activa y con progresión⁸, basado en 17 años de evolución de la enfermedad desde 2001, con deterioro cognitivo leve, precisando apoyo bilateral a través de bastones, ≥ 1 lesiones hiperintensas en secuencias T2 a nivel bilateral periventricular y yuxtacortical fronto-parietooccipital y detección mediante enfoque isoelectrico de bandas oligoclonales de IgG en líquido cefalorraquídeo (escala ampliada del estado de discapacidad de Kurtzke [EDSS]: 6.5), quien en 2016 acudió al Servicio de Urgencias Hospitalarias, con una historia de un mes de evolución, caracterizada por la creencia fija e irrefutable de estar infestado por gusanos que se desplazaban bajo la piel de la región peribucal y de los dedos de sus manos y pies. Él, igualmente, afirmaba traer algunos de estos «gusanos» dentro de un frasco de vidrio. Su esposa aseveraba que como resultado de este cuadro clínico se había producido un menoscabo importante de la calidad de vida del paciente, especialmente del funcionamiento social. Nunca había recibido terapias modificadoras de la enfermedad (TMEs), solo metilprednisolona por vía intravenosa para tratar una neuritis óptica derecha en 2010.

Sin otros antecedentes médico-quirúrgicos de interés. Procediéndose a trasladar al paciente a un box a cargo de los Servicios de Neurología y Psiquiatría.

Una evaluación neuropsiquiátrica exhaustiva no reveló nuevos síntomas y/o signos, aparte de una paraparesia grave (ya conocida). El análisis de las muestras de la piel con un microscopio óptico confirmó su correspondencia con detritos epidérmicos. La analítica general descartó causas tóxico-metabólicas (incluyendo los perfiles vitamínico, de autoinmunidad, tiroideo, drogas de abuso en sangre y orina, etc.) e infecciosas (virus de la inmunodeficiencia humana [VIH], sífilis, *Brucella*, etc.) y la tomografía axial computarizada (TAC) craneal evidenció múltiples hipodensidades periventriculares subcorticales (fig. 1A-C).

Se optó por no iniciar tratamiento con corticosteroides (CEs) e instaurar tratamiento oral con risperidona (RP) 0.5 mg c/12 h, obteniendo una mejoría significativa del DP en las 24 h posteriores a su administración, pudiéndose cursar el alta domiciliaria del paciente transcurridas 48 h en observación en Urgencias, con un seguimiento estrecho como paciente ambulatorio en consultas de Neurología y Psiquiatría.

Posteriormente, la resonancia magnética (RM) craneal realizada al 3.º mes (fig. 1D-L), en comparación con las RM previas, reveló que algunas de las lesiones desmielinizantes eran nuevas y se localizaban en áreas temporales periventriculares, sin realzar tras la administración intravenosa de gadolinio y sin lesiones en otras áreas, incluyendo la médula espinal. Finalmente, el paciente fue diagnosticado de 340 [G35] EM; 293.81 [F06.2] trastorno psicótico debido a EM, con delirios, codificación del *Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales*, 5.ª edición (DSM-5)⁹. Tras 6 meses de tratamiento con RP 0.5 mg c/12 h vía oral, se redujo gradualmente durante un mes, hasta ser retirada, permaneciendo la situación clínica del paciente estable hasta la actualidad.

La interpretación correcta de las alteraciones neuropsiquiátricas es relevante para todos los profesionales implicados en la atención sanitaria de las personas con EM, teniendo un impacto significativo en el funcionamiento sociolaboral y familiar, y por ende, en la calidad de vida de estos pacientes y sus familias. De igual forma, afectan negativamente a su grado de adherencia a las TMEs y los regímenes de tratamiento prescritos para otras afecciones médicas^{2,5,10,11}.

Aunque los trastornos psicóticos en la EM son infrecuentes, los estudios muestran que su prevalencia es más alta de lo atribuible al mero azar^{2,3,12}. La etiología exacta sigue siendo desconocida. La teoría principal propone que pueden estar generados por el efecto directo de las lesiones desmielinizantes, ya que los pacientes con EM con psicosis tienen más probabilidades de presentar placas que afecten las regiones temporales periventriculares^{2,6,7,10,12}, como en el caso de nuestro paciente, desencadenando una disrupción de la vía dopaminérgica mesolímbica, lo cual podría explicar la etiopatogenia de estos síntomas⁷.

La presentación predominante está marcada por síntomas psicóticos positivos (ideas delirantes, generalmente persecutorias) con relativa ausencia de síntomas negativos¹². El tratamiento de la psicosis en pacientes

[☆] Trabajo presentado como póster en la LXVIII Reunión Anual de la Sociedad Española de Neurología (Valencia, España, 15-19 de noviembre del 2016) y como poster on display en el 3rd Congress of the European Academy of Neurology (Ámsterdam, Países Bajos, 24-27 de junio de 2017).

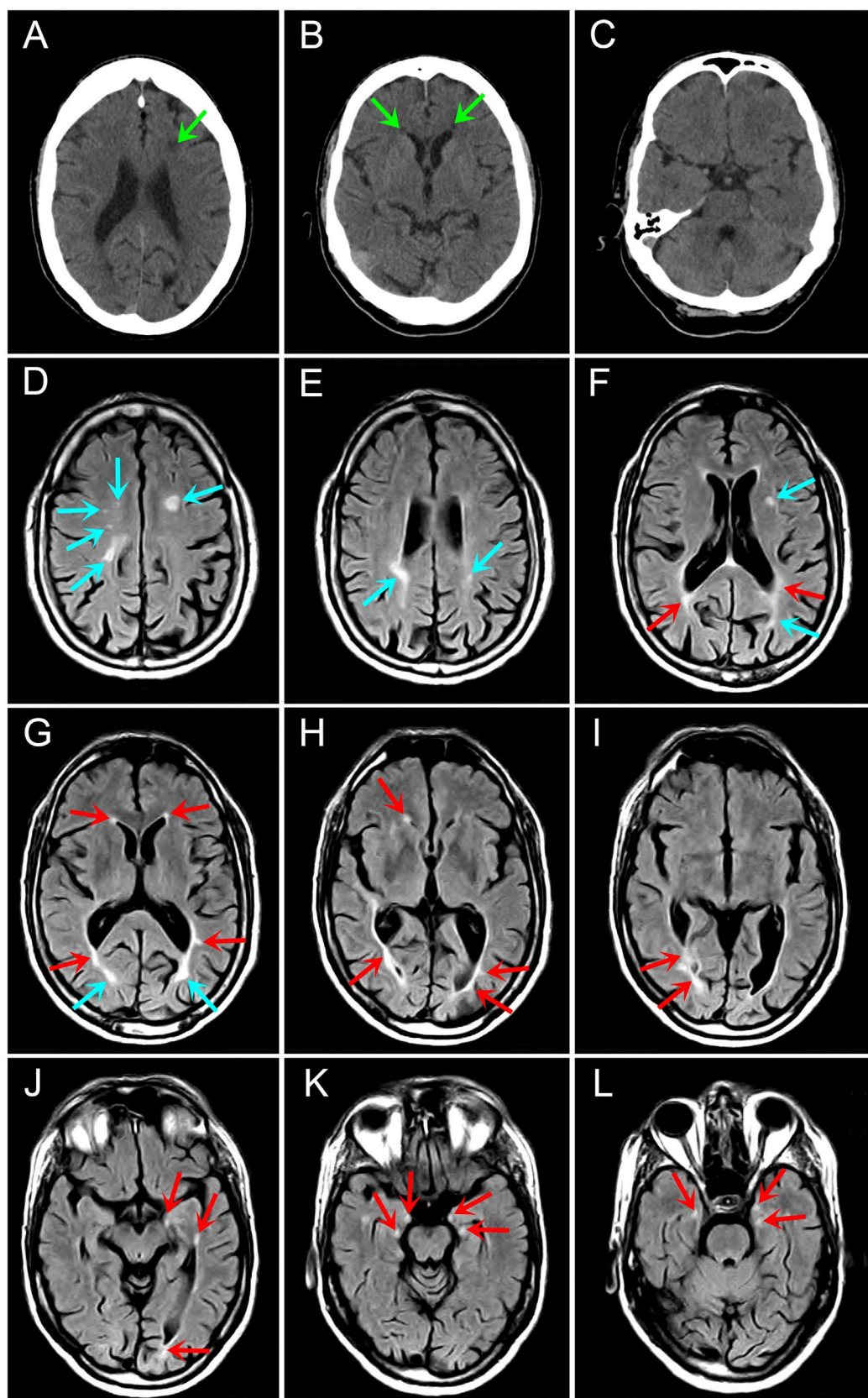


Figura 1 Pruebas de neuroimagen efectuadas al inicio y durante el seguimiento del paciente. A-C) TAC craneal en la presentación clínica (sin contraste): se revela la presencia de lesiones hipodensas subcorticales inespecíficas, mal delimitadas, en la región periventricular de ambos hemisferios cerebrales y en la parte anterior del lóbulo frontal izquierdo (flechas verdes), probablemente

con EM es el mismo que el empleado para aquellos sin EM comórbida, evitando el tratamiento con CE's e interferón beta debido al riesgo de inducir o exacerbar los síntomas psicóticos^{5,10}. El delirio generalmente no desaparece, pero puede ser encapsulado, es decir, mitigarse, convirtiéndose en una inferencia parcialmente incorrecta de la realidad, sin llegar a dominar ni limitar la vida o el nivel de funcionamiento del paciente. Existe una falta de evidencia para seleccionar un fármaco antipsicótico en particular, prefiriéndose no obstante los antipsicóticos de segunda generación (RP, ziprasidona, clozapina, aripiprazol, quetiapina y olanzapina) a dosis bajas, debido al menor riesgo que comportan de desarrollar efectos secundarios extrapiramidales^{2,12}.

De acuerdo con la evidencia científica publicada hasta el momento, *online* y *offline*, este sería el primer caso descrito con tal escenario singular como manifestación de un brote de EMPP. Por lo tanto, los clínicos deberían considerar esta posibilidad cuando afronten un DP en pacientes con EM. Asimismo, un estudio reciente ha demostrado cómo la RP reduce significativamente la activación de la microglía y los macrófagos en el SNC, en el modelo experimental de ratón con encefalomielitis autoinmune experimental, lo que sugiere su potencial actividad inmunomoduladora¹³.

En conclusión, el hecho de que la aparición de las nuevas lesiones temporales periventriculares coincidiese con el DP, y que el paciente respondiera rápidamente al tratamiento con RP, sugiere que el DP fue una manifestación aguda de la EM. No obstante, la escasez de datos de ensayos clínicos en sujetos con EM que confirmen que la RP influye positivamente en el curso de la enfermedad mediante un efecto antiinflamatorio subraya la necesidad de confeccionar estudios controlados adicionales que diluciden esta hipótesis. Por lo tanto, en la actualidad, la alianza terapéutica médico-paciente y un enfoque interdisciplinar entre los equipos de Neurología y Psiquiatría resultan cruciales para lograr un abordaje holístico, integral y exitoso de estos pacientes.

Como punto final aclaratorio, queremos hacer constar que la principal limitación diagnóstica para filiar la relación espacio-temporal exacta de nuestro caso es no haber podido administrar un medio de contraste al paciente durante la realización de la TAC craneal en el momento de su consulta en Urgencias, a consecuencia de la agitación psicomotriz del mismo en el contexto de una probable reacción alérgica al inicio de la administración del medio

iodado, en forma de una reacción urticarial moderada en tronco y extremidades, sin angioedema (resuelta tras la administración intravenosa de medicación antihistamínica y sueroterapia); y ante la petición de sus familiares de evitar la realización de cualquier tipo de prueba invasiva que no aportara una mejoría significativa del pronóstico en cuanto a su independencia funcional, optándose en último término, tras los hallazgos evidenciados en la TAC craneal simple y la mejoría clínica tras el inicio de la RP, por un manejo interdisciplinar conservador. Y por otra parte, el hecho de que las lesiones no realzaran en la RM craneal del 3.^{er} mes tras el inicio clínico, no invalida el diagnóstico, ya que si bien el realce con contraste de las lesiones agudas en los pacientes con EM es reversible, con una duración media de 3 semanas (aunque en un 3% de los casos puede perdurar > 2 meses)¹⁴, esta potencial limitación diagnóstica queda soslayada debido a que, tras ser cotejada con las RMs previas, existían lesiones de *novo* localizadas bilateralmente en la región temporal periventricular.

Bibliografía

1. Reich DS, Lucchinetti CF, Calabresi PA. Multiple sclerosis. *N Engl J Med*. 2018;378:169–80.
2. Murphy R, O'Donoghue S, Counihan T, McDonald C, Calabresi PA, Ahmed M, et al. Neuropsychiatric syndromes of multiple sclerosis. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2017;88:697–708.
3. Patten SB, Svenson LW, Metz LM. Psychotic disorders in MS: population-based evidence of an association. *Neurology*. 2005;65:1123–5.
4. Vulink NC. Delusional infestation: state of the art. *Acta Derm Venereol*. 2016;96:58–63.
5. Suh KN, Keystone JS. Delusional infestation: Epidemiology, clinical presentation, assessment and diagnosis. En: Marder S, Hermann R, Ofori AO, editores. UpToDate; 2018. [actualizado 25 Ene 2018; consultado 24 Feb 2018]. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/delusional-infestation-epidemiology-clinical-presentation-assessment-and-diagnosis>.
6. Feinstein A, du Boulay G, Ron MA. Psychotic illness in multiple sclerosis. A clinical and magnetic resonance imaging study. *Br J Psychiatry*. 1992;161:680–5.
7. Fricchione GL, Carbone L, Bennett WL. Psychotic disorder caused by a general medical condition, with delusions. Secondary 'organic' delusional syndromes. *Psychiatr Clin North Am*. 1995;18:363–78.

relacionadas con placas de desmielinización (paciente previamente diagnosticado de EM). Estudio sin hallazgos de patología intracranial aguda. Desafortunadamente, el procedimiento radiológico se interrumpió, ya que no fue posible obtener una neuroimagen empleando el material de contraste iodado a causa de la agitación psicomotriz del paciente en el contexto de una probable reacción alérgica al medio iodado. D-L) RM craneal realizada 3 meses después (secuencia FLAIR en el plano axial): las imágenes muestran al menos 30 lesiones hiperintensas supratentoriales (flechas rojas y azules brillantes). Algunas lesiones tienen una morfología ovoide y otras son confluentes de bordes irregulares y poco definidos, siendo compatibles con placas de EM de bordes puntiagudos. La gran mayoría de las lesiones se agrupan alrededor de las regiones periventriculares (flechas rojas), especialmente en la sustancia blanca profunda que rodea las astas temporales de los ventrículos laterales (J-L). Ulteriormente, no se obtuvo un realce después de la administración de contraste en las secuencias potenciadas en T1. Sin hallarse lesiones en otras regiones, incluidos todos los segmentos de la médula espinal. EM: esclerosis múltiple; FLAIR: *fluid-attenuated inversion recovery*; RM: resonancia magnética; TAC: tomografía axial computarizada.

8. Lublin FD, Reingold SC, Cohen JA, Cutter GR, Sørensen PS, Thompson AJ, et al. Defining the clinical course of multiple sclerosis: the 2013 revisions. *Neurology*. 2014;83:278–86.
9. American Psychiatric Association. Schizophrenia spectrum and other psychotic disorders. En: American Psychiatric Association, editor. *Diagnostic and statistical manual of mental disorders*. 5th ed. (DMS-5) Arlington: American Psychiatric Publishing; 2013. p. 87–122.
10. Camara-Lemarroy CR, Ibarra-Yruegas BE, Rodríguez-Gutiérrez R, Berrios-Morales I, Ionete C, Riskind P. The varieties of psychosis in multiple sclerosis: a systematic review of cases. *Mult Scler Relat Disord*. 2017;12:9–14.
11. Politte LC, Huffman JC, Stern TA. Neuropsychiatric manifestations of multiple sclerosis. *Prim Care Companion J Clin Psychiatry*. 2008;10:318–24.
12. Sommerlad A, Price G, Trip A. Management of neuropsychiatric symptoms in multiple sclerosis. *Prog Neurol Psychiatry*. 2014;18:14–9.
13. O'Sullivan D, Green L, Stone S, Zareie P, Kharkrang M, Fong D, et al. Treatment with the antipsychotic agent, risperidone, reduces disease severity in experimental autoimmune encephalomyelitis. *PLoS One*. 2014;9:e104430.
14. Rovira A, Tintoré M, Álvarez-Cermeño JC, Izquierdo G, Prieto JM. Recomendaciones para la utilización e interpretación de los estudios de resonancia magnética en la esclerosis múltiple. *Neurología*. 2010;25:248–65.

M. León Ruiz^{a,b,*}, A.J. Mitchell^c
y J. Benito-León^{d,e,f}

^a Servicio de Neurología, Hospital Universitario Príncipe de Asturias, Alcalá de Henares, Madrid, España

^b Servicio de Neurología, Clínica San Vicente, Madrid, España

^c Servicio de Psicooncología, Leicestershire Partnership Trust and University of Leicester, Leicester, Reino Unido

^d Servicio de Neurología, Hospital Universitario 12 de Octubre, Madrid, España

^e Departamento de Medicina, Facultad de Medicina, Universidad Complutense de Madrid, Madrid, España

^f Centro de Investigación Biomédica en Red sobre Enfermedades Neurodegenerativas (CIBERNED), Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: pistolpete271285@hotmail.com
(M. León Ruiz).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2018.03.013>
0213-4853/

© 2018 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Hipofunción vestibular bilateral intercrítica en una paciente con migraña. Hacia la hipótesis integradora



Bilateral vestibular hypofunction occurring between migraine attacks: toward an integrative hypothesis

Sr. Editor:

La relación entre la migraña y los síntomas vestibulares es bien conocida y se discute la posible participación central o periférica¹.

Presentamos el caso de una mujer de 34 años que acude a la consulta por un cuadro marcado de inestabilidad de instauración rápidamente progresiva, en 3 h, que permanecía desde hacía 3 semanas. La exploración neurológica fue normal y la exploración neuro-otológica, incluyendo «head impulse test» y maniobra de Halmagy no mostró alteraciones. Aportaba una RM craneal realizada en otro centro sin alteraciones significativas. Con el diagnóstico de mareo neurofisiológico se inició tratamiento con sertralina a dosis de 25 mg y se reevaluó a la paciente a la semana para realizar un v-HIT. Sin mejoría clínica el v-HIT muestra una hipofunción vestibular bilateral (fig. 1), razón por la que se decide añadir al tratamiento con sertralina topiramato a dosis de 50 mg por la noche. Al mes la paciente estaba prácticamente asintomática, repitiéndose el v-HIT que se había normalizado (fig. 2).

La relación entre los problemas vestibulares y la migraña se conoce desde hace tiempo, aunque en los últimos años

se ha centrado la investigación. Habitualmente los pacientes padecen vértigo recurrente asociado a la migraña², entidad que cursa con ilusión de movimiento, altamente incapacitante que puede durar de horas a días. La hipótesis actual más plausible es que se trate de un proceso con par-

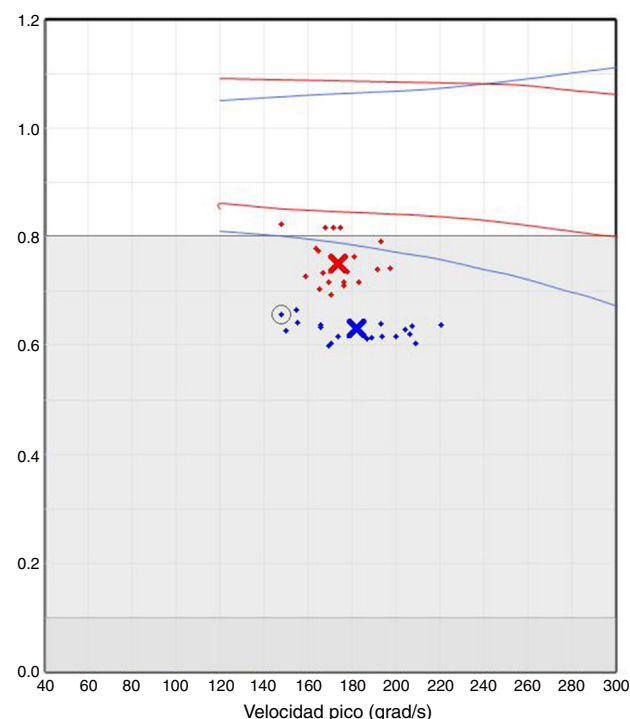


Figura 1 Análisis del v-HIT inicial.