

Edema cerebral idiopático de inicio tardío asociado a estimulación cerebral profunda

Idiopathic delayed-onset edema associated with deep brain stimulation

Sr. Editor:

La estimulación cerebral profunda (ECP) ha supuesto un salto cualitativo en el tratamiento de ciertas patologías neurológicas y psiquiátricas. Entre sus complicaciones se encuentra la posibilidad de desarrollar edema de aparición tardía en el parénquima circundante a los electrodos.

Presentamos dos nuevos casos de edema perielectrodo idiopático de inicio tardío en pacientes con temblor esencial (TE) sometidos a ECP en el núcleo ventral intermedio del tálamo (Vim).

El caso 1 se trata de un varón de 67 años con antecedentes de angioedema facial recidivante sometido a implantación bilateral de electrodos direccionales en Vim. El procedimiento transcurrió sin incidencias. La TC de control fue normal.

Presentó una evolución favorable tras la cirugía, recibiéndolo el alta a las 72 h. Dos días después, el paciente comenzó con somnolencia, cefalea, disartria y alteración del lenguaje. No hubo cambios en la intensidad del temblor. Se llevó a cabo una nueva TC que mostró edema de aspecto vasogénico rodeando la trayectoria de ambos electrodos, tras lo que se instauró tratamiento empírico con meropenem y dexametasona. Posteriormente se obtuvo una RM (fig. 1) que reveló la presencia de edema vasogénico, sin restricción en difusión, con una discreta captación de contraste en anillo incompleto. Estos hallazgos resultaban sugestivos de un proceso inflamatorio sin causa infecciosa, optándose por la suspensión de la antibioterapia. Clínicamente, el paciente experimentó una mejoría progresiva, con desaparición de

los síntomas durante la 5.ª semana de evolución. Un año después continúa asintomático, con resolución completa del edema en la neuroimagen de control.

El caso 2 es un varón de 59 años diagnosticado de TE incapacitante, sin otros antecedentes de interés, sometido a implantación bilateral de electrodos direccionales en Vim. No se produjeron incidencias durante la cirugía, siendo la TC de control normal.

El paciente experimentó somnolencia y disartria una semana después de la intervención. El temblor, que había mejorado en el postoperatorio inmediato, aumentó ligeramente su intensidad. La TC reveló la presencia de edema rodeando el electrodo derecho. Este hallazgo fue interpretado como un posible absceso, por lo que se inició antibioterapia con vancomicina y ceftazidima. Posteriormente se realizó RM (fig. 2) que confirmaba la presencia de edema vasogénico hiperintenso en secuencia T2 sin captación de gadolinio ni restricción de difusión. Con estos hallazgos se optó por suspender los antimicrobianos, iniciándose dexametasona. Los síntomas remitieron 10 días después de su comienzo. La TC de control a los 6 meses confirmó la desaparición del edema. El paciente permanece asintomático un año después del inicio del cuadro.

La ECP ha supuesto un cambio de paradigma en el tratamiento del TE incapacitante^{1,2}. Entre sus efectos adversos más frecuentes se incluyen disartria, ataxia o parestesias³. Las complicaciones graves conllevan una mortalidad del 0,4% y secuelas permanentes en el 1% de los casos^{4,5}.

Los casos 1 y 2 fueron sometidos a implante de ECP en Vim de manera bilateral. Ambos presentaron en los siguientes días un deterioro neurológico subagudo. Recibieron dexametasona y antibioterapia, que fue suspendida tras descartarse un origen infeccioso. Los síntomas persistieron durante 34 días en el caso 1 y 10 días en el caso 2.

El edema idiopático de inicio tardío asociado a ECP ha sido definido como edema rodeando a los electrodos que habitualmente aparece tras más de 72 h desde la intervención, en ausencia de trauma y complicaciones vasculares o infecciosas. Ocasionalmente su aparición

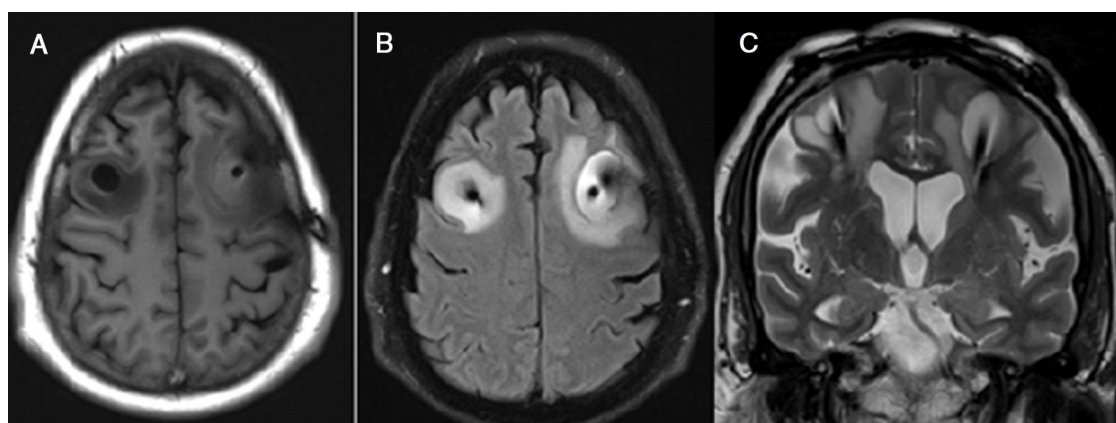


Figura 1 Caso 1: Edema cerebral visualizado mediante RM. (A) Secuencia T1 plano axial que muestra hipointensidad de señal rodeando a los electrodos. (B) Secuencia FLAIR axial en la que se visualiza hiperseñal perielectrodo que se corresponde con área de edema vasogénico. (C) Secuencia T2 plano coronal, se visualiza área de hiperseñal ovoidea rodeando los electrodos asociada a edema vasogénico.

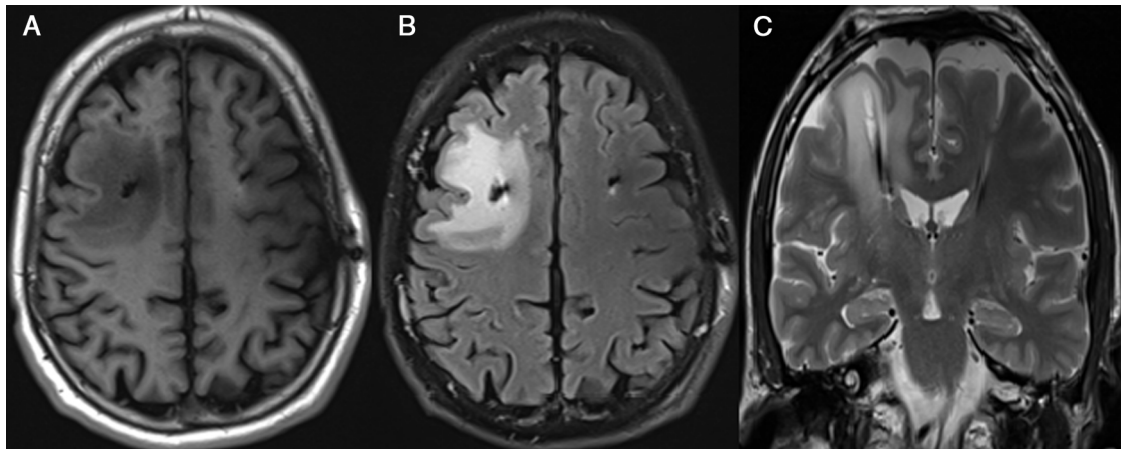


Figura 2 Caso 2: Edema cerebral visualizado mediante RM. (A) Secuencia T1 corte axial que muestra una baja señal de la sustancia blanca frontal derecha que rodea al electrodo. (B) Secuencia FLAIR corte axial en la que se visualiza hiperseñal secundaria al edema vasogénico perielectrodo derecho. (C) Secuencia T2 corte coronal donde se aprecia hiperseñal unilateral derecha.

puede acontecer de un modo más precoz^{6,7}. La incidencia publicada varía desde un 0,4% a un 39% de los procedimientos⁴. Una cohorte prospectiva publicada recientemente refleja una incidencia de edema sintomático del 31,7%, que alcanza el 100% si se incluyen los casos asintomáticos⁸.

El síntoma más común es el estado confusional, siendo la cefalea o las crisis comiciales otras manifestaciones frecuentes⁹. En prácticamente todos los casos publicados la duración del cuadro es inferior a 3 meses. La neuroimagen mostrará edema rodeando el electrodo de manera uni o bilateral y resulta fundamental para establecer el diagnóstico y descartar otras complicaciones. Habitualmente no existe captación de contraste, aunque excepcionalmente puede presentarse un ligero realce como en nuestro caso^{14,10}.

Las series publicadas no han mostrado asociación del edema tardío con la técnica quirúrgica ni con los antecedentes del paciente. La hipótesis etiopatogénica más aceptada es la de una reacción mediada por IgE o por citoquinas liberadas en presencia de material extraño⁴. Otros autores hipotetizan que se debe al trauma local producido durante el emplazamiento de los electrodos¹¹. Consideramos posible que el antecedente de angioedema recidivante en el caso 1 juegue un papel. En este caso, una permeabilidad vascular incrementada facilitaría la acumulación de líquido intersticial perielectrodo.

Debemos considerar esta entidad ante un deterioro neurológico tras implantación de ECP. Su pronóstico es bueno y no dispone de tratamiento específico. El uso de corticoides resulta controvertido. Una vez confirmado el diagnóstico, los antimicrobianos deben ser evitados^{4,8}.

Bibliografía

1. Haubenberger D, Hallett M. Essential Tremor. *N Engl J Med*. 2018;378:1802–10, <http://dx.doi.org/10.1056/NEJMc1707928>.
2. Zesiewicz TA, Elble R, Louis ED, Hauser RA, Sullivan KL, Dewey RB, et al. Practice parameter: therapies for essential tremor report of the Quality Standards Subcommittee of the American Academy of Neurology. *Neurology*. 2005;64:2008–20, <http://dx.doi.org/10.1212/01.WNL.0000163769.28552.CD>.
3. Groppa S, Herzog J, Falk D, Riedel C, Deuschl G, Volkmann J. Physiological and anatomical decomposition of subthalamic neurostimulation effects in essential tremor. *Brain*. 2014;137:109–21, <http://dx.doi.org/10.1093/brain/awt304>.
4. De Cuba CM, Albanese A, Antonini A, Cossu G, Deuschl G, Eleopra R, et al. Idiopathic delayed-onset edema surrounding deep brain stimulation leads: Insights from a case series and systematic literature review. *Parkinsonism Related Disord*. 2016;32:108–15, <http://dx.doi.org/10.1016/j.parkreldis.2016.09.007>.
5. Tong F, Ramírez-Zamora A, Gee L, Pilitsis J. Unusual complications of deep brain stimulation. *Neurosurg Rev*. 2015;38:245–52, <http://dx.doi.org/10.1007/s10143-014-0588-9>.
6. Lee JJ, Daniels B, Austerman RJ, Dalm BD. Symptomatic, left-sided deep brain stimulation lead edema 6 h after bilateral subthalamic nucleus lead placement. *Surg Neurol Int*. 2019;10:68, <http://dx.doi.org/10.25259/SNI-125-2019>.
7. Schoen NB, Jermakowicz WJ, Luca CC, Jagid JR. Acute symptomatic peri-lead edema 33 hours after deep brain stimulation surgery: a case report. *J Med Case Rep*. 2017;11:103, <http://dx.doi.org/10.1186/s13256-017-1275-6>.
8. Borellini L, Ardolino G, Carrabba G, Locatelli M, Rampini P, Sbaraini S, et al. Peri-lead edema after deep brain stimulation surgery for Parkinson's disease: a prospective magnetic resonance imaging study. *Eur J Neurol*. 2019;26:533–9, <http://dx.doi.org/10.1111/ene.13852>.
9. Nazzaro JM, Pahwa R, Lyons KEJ. Symptomatic, non-infectious, non-hemorrhagic edema after subthalamic nucleus deep brain stimulation surgery for Parkinson's disease. *Neurol Sci*. 2017;383:42–6, <http://dx.doi.org/10.1016/j.jns.2017.10.003>.
10. Englot DJ, Glastonbury CM, Larson PS. Abnormal T2-weighted MRI signal surrounding leads in a subset of deep brain stimulation patients. *Stereotact Funct Neurosurg*. 2011;89:311–7, <http://dx.doi.org/10.1159/000329365>.
11. Lefaucheur R, Derrey S, Borden A, Wallon D, Ozkul O, Gérardin E, et al. Post-operative edema surrounding the electrode: an

unusual complication of deep brain stimulation. Brain Stimul. 2013;6:459–60, <http://dx.doi.org/10.1016/j.brs.2012.05.012>.

P. Siso García^{a,*}, E. Suárez San Martín^a, A. Saiz Ayala^b
y M. Blázquez Estrada^a

^a Servicio de Neurología, Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, España

^b Servicio de Radiología, Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, España

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: pablo.siso@hotmail.com
(P. Siso García).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.02.003>

Neuroestimulación eléctrica transcutánea (TENS) en vejiga neurógena secundaria a mielitis transversa



Transcutaneous electrical nerve stimulation (TENS) in neuropathic bladder due to transverse myelitis

Sr. Editor:

La electroestimulación sacra percutánea con electrodos implantables es actualmente una de las terapias más prometedoras en el manejo de los pacientes con vejiga neurógena (VN)¹, mientras que la electroestimulación sacra transcutánea (TENS) ha mostrado ser una terapia efectiva en vejiga hiperactiva idiopática^{2–4}. Recientemente nuestro grupo ha presentado también la efectividad de uso de TENS de forma domiciliar en pacientes pediátricos⁵. La mielitis transversa (MT) es una causa muy poco habitual de VN en niños siendo la mielodisplasia la causa más frecuente¹. Los buenos resultados observados con el empleo de TENS domiciliar en vejiga hiperactiva idiopática nos han llevado a plantear su uso en pacientes pediátricos con VN sin mielodisplasia.

Presentamos el caso de una niña de 8 años tratada en nuestra Unidad de Urodinámica Pediátrica desde los 5 años por VN secundaria a cuadro de MT a los 2 años de vida. Previo al cuadro de MT presentaba adecuada continencia urinaria y fecal, habiendo completado el entrenamiento miccional. Como secuelas, presentó ausencia de reflejos osteotendino-

sos en miembros inferiores, pérdidas urinarias, infecciones urinarias de repetición y estreñimiento con encopresis. A los 5 años fue derivada a nuestra Unidad por persistencia de la sintomatología urinaria y fecal.

Tras el adecuado manejo intestinal se realizaron estudios urodinámicos y evaluamos la severidad de la sintomatología urinaria utilizando el cuestionario Pediatric Lower Urinary Tract Symptoms Score (rango=0-34) (PLUTSS)⁶. La cistomanometría mostró una capacidad vesical (CV) de 90 cc para una CV esperada por su edad de 240 cc, detrusor hiperreflexo con contracciones de 100 ccH₂O de presión detrusoriana que ocasionaban fugas de orina, esfínter disinérgico y residuo posmiccional elevado (fig. 1). La puntuación en el cuestionario PLUTSS era de 28. Tras iniciarse terapia con anticolinérgicos (oxibutinina) y cateterismos vesicales intermitentes se mostró leve mejoría urodinámica (CVF=120 cc, contracciones hiperreflexas desde 70 cc de llenado y con amplitud de 50 ccH₂O de presión detrusoriana) y clínica (PLUTSS=27) (fig. 2), manteniéndose sin cambios un año después del inicio de la terapia. Debido a la hiperreflexia de detrusor refractaria, previo a realizar tratamiento quirúrgico (enterocistoplastia o inyección de toxina botulínica) se planteó a la familia la aplicación de TENS asociada al tratamiento anticolinérgico. Se instruyó en consultas a la familia en el uso del electroestimulador (UroS-TIM 2.0.) a nivel sacro (S2-S3). Los parámetros de corriente empleados fueron 10 Hz de frecuencia y 200 μseg de longitud de onda. La intensidad se reguló de forma diaria según la máxima intensidad tolerada sin dolor. Se realizaron sesiones diarias de 20 min, mientras la paciente cenaba o veía la televisión. Tras 3 meses de terapia se observó mejoría cistomanométrica: CVF=240 cc, sin pérdidas durante el lle-

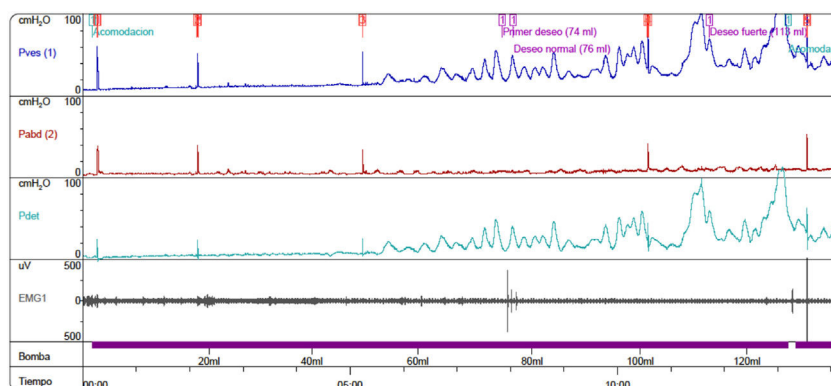


Figura 1 Estudio urodinámico inicial: detrusor hiperreflexo con contracciones de hasta 100 ccH₂O de presión detrusoriana (Pdet) que ocasionaban fugas de orina (no registradas en la imagen). La flujometría posterior mostró esfínter disinérgico y residuo posmiccional elevado.