



## Diseción triple y progresiva de las arterias cervicales asociada a infección respiratoria del tracto superior

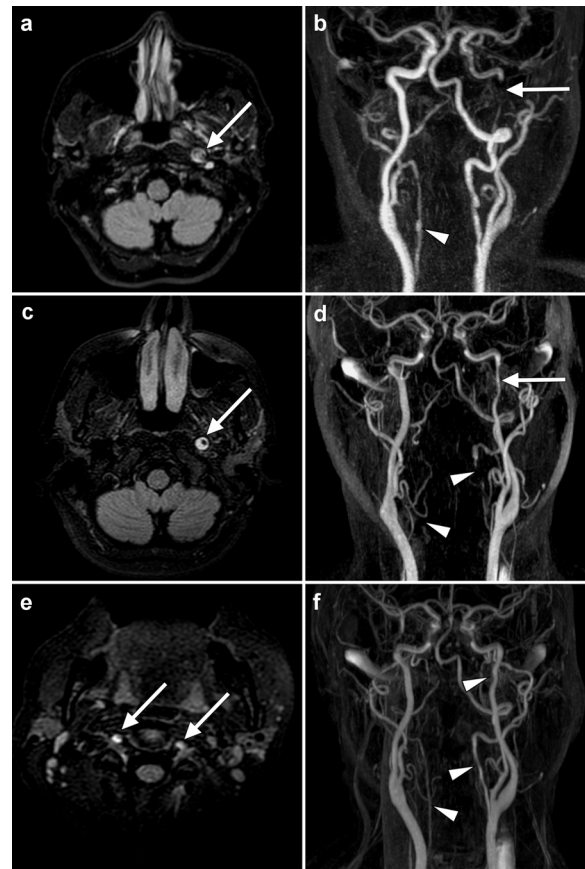
### Progressive triple dissection of the cervical arteries in association with upper respiratory tract infection

Sr. Editor:

La diseción arterial cervical (DAC) es consecuencia de la penetración subintimal de sangre y la subsiguiente extensión longitudinal del hematoma intramural entre las capas del vaso<sup>1</sup>. Su fisiopatología es desconocida. Se ha postulado que, además de traumatismos menores, factores ambientales como las infecciones agudas podrían actuar como desencadenantes en individuos predispuestos<sup>2</sup>. En el 15% de los casos la DAC puede ser múltiple y simultánea<sup>3</sup>, sin embargo, la diseción de más de dos arterias cervicales es un fenómeno excepcional<sup>4</sup>. Presentamos el caso de una paciente con una diseción múltiple, simultánea y progresiva de tres arterias cervicales concurrente con una infección respiratoria alta.

Una mujer de 45 años consulta por ptosis palpebral y miosis izquierdas asociada a intensa cefalea. Refiere molestias a nivel de la garganta, tos y fiebre de hasta 39 °C de tres días de evolución. La exploración demuestra únicamente un Síndrome de Horner izquierdo. En el análisis de sangre se detecta una elevación de marcadores inflamatorios que incluye: ligera leucocitosis, fibrinógeno 410 mg/dL y proteína C reactiva ultrasensible 3,22 mg/dL. El electrocardiograma (ECG), la radiografía de tórax y la tomografía computarizada (TC) cerebral son normales. El estudio neurosonológico revela la ausencia de flujo en la porción terminal de la arteria carótida interna (ACI) a nivel intracraneal, un flujo amortiguado y lento en la arteria cerebral media izquierda, y la inversión del flujo en el segmento A1 de la arteria cerebral anterior junto con la apertura de la arteria comunicante posterior ipsilaterales, de tal forma que nutren a dicha arteria cerebral media. Se realiza una resonancia magnética (RM) cerebral con angioRM que confirma la presencia de una diseción en la ACI izquierda (fig. 1a, b) sin que se observen lesiones isquémicas. La ausencia de eventos clínicos y lesiones radiológicas sugestivos de isquemia cerebral se pone en relación con la compensación de la hemodinámica cerebral a través de la apertura de colaterales, tal cual se muestra en el estudio neurosonológico. Se inicia tratamiento anticoagulante y analgésico. Tras la resolución de la cefalea se decide el alta a domicilio.

Sin embargo, tres semanas después reingresa por reaparición de la cefalea de gran intensidad. Una nueva RM objetiva una diseción bilateral de las arterias vertebrales (AV) (fig. 1c-e). La revisión del estudio inicial (fig. 1b) revela ligeras irregularidades en las AV extracraneales que habían pasado desapercibidas en un primer momento. Ante la progresión del hematoma se cambia la anticoagulación por antiagregación con ácido acetilsalicílico (AAS). Se decide completar el estudio. Los estudios microbiológicos son negativos. Se detectan anticuerpos antinucleares a una dilución 1:320 con patrón homogéneo, aunque la paciente no pre-



**Figura 1** Características radiológicas evolutivas en diferentes secuencias de RM cerebral de la diseción de las arterias cervicales.

El estudio inicial (a, b) muestra una hiperseñal (flecha) del trombo intramural en el segmento cervical distal de la arteria carótida interna izquierda (a: FLAIR) y un defecto de llenado (flecha) (b: secuencias angiográficas) compatibles con una diseción. Una irregularidad en la arteria vertebral derecha (punta de flecha) pasó inicialmente desapercibida en este estudio. Un mes después (c, d, e), una hiperseñal (flecha) con el signo de la luna creciente continúa estando presente en la arteria carótida interna izquierda (c: FLAIR), aunque se observa una mejoría en el flujo (flecha) (d: secuencias angiográficas). En este momento, la RM muestra también un aumento de señal (flechas) en el segmento extracraneal de ambas arterias vertebrales (e: FLAIR), lo cual se correlaciona con la ausencia de flujo (punta de flecha) (d: secuencias angiográficas), sugestivo de diseción bilateral de las arterias vertebrales. Las secuencias angiográficas realizadas a los seis meses del inicio (f) muestran el restablecimiento del flujo en la arteria carótida interna izquierda y las arterias vertebrales (puntas de flecha).

senta datos definitivos de enfermedad reumatológica. Se lleva a cabo también un angioTC tóraco-abdominal en el que no hay imágenes sugestivas de displasia fibromuscular u otra vasculopatía. Tras un ingreso prolongado para control analgésico evoluciona favorablemente. Seis meses tras el debut se realiza una RM de control que muestra una resolución subtotal de la DAC (fig. 1f). Desde el punto de vista clínico no ha vuelto a presentar cefalea, no se han producido even-

tos isquémicos y persiste únicamente el síndrome de Horner izquierdo.

El caso que presentamos destaca por la afectación simultánea de tres de las cuatro arterias cervicales responsables del aporte sanguíneo cerebral, la infección previa y el curso progresivo. La DAC triple o incluso cuádruple es un fenómeno excepcional que se ha descrito en 1,5% y 0,1% respectivamente de los pacientes con DAC espontáneas<sup>4</sup>. El antecedente de infección reciente, típicamente respiratoria<sup>5,6</sup>, se observa en hasta el 32% de los pacientes con DAC espontáneas<sup>7</sup>, es tres veces más frecuente que en aquellos con isquemia cerebral de otro origen y seis veces más frecuente en los que tienen disecciones múltiples comparado con los que tienen una disección única<sup>5</sup>. El mecanismo que subyace a esta asociación es desconocido. Factores mecánicos como toser, estornudar o vomitar no son suficientes para explicarlo<sup>6</sup>. De igual forma que en el caso presentado, estos pacientes muestran niveles elevados de marcadores inflamatorios<sup>7,8</sup>, lo que sugiere el papel de la inflamación en la patogénesis de esta enfermedad. Se ha postulado que las infecciones pueden desencadenar una respuesta inflamatoria que, a través de la liberación de citoquinas y proteasas, da lugar al daño de la matriz extracelular y debilita la pared vascular<sup>5,9</sup>. Esto podría ser especialmente importante en sujetos susceptibles con arteriopatías o enfermedades del tejido conectivo de base, los cuales exhiben un mayor riesgo de disección múltiple<sup>3,10</sup>. Globalmente, y en ausencia de otras alteraciones, en este tipo de pacientes la literatura sugiere que el trastorno subyacente podría ser una vasculopatía transitoria<sup>4</sup>.

Otro punto importante en este caso fue la reaparición de la cefalea tras la primera hospitalización. A pesar de que inicialmente consultó por el síndrome de Horner, fue el intenso dolor el síntoma más discapacitante y el que condicionó el reingreso. Esto nos permitió detectar la progresión de la disección arterial, probablemente responsable del empeoramiento de la cefalea. Es un hallazgo fundamental que debe ponernos en alerta en torno a la posibilidad de una progresión de la enfermedad.

Por último, debemos hacer una serie de consideraciones con respecto al tratamiento. En primer lugar, la literatura reciente señala que los pacientes con afectación múltiple tienen un riesgo tres veces mayor tanto de isquemia cerebral como de hemorragia subaracnoidea con relación a aquellos con una sola arteria disecada<sup>9</sup>. Por otro lado, aunque el ensayo CADISS no mostró diferencias significativas entre el tratamiento antiagregante y la anticoagulación en los pacientes con DAC<sup>11</sup>, hasta el momento no se han publicado resultados comparando ambas alternativas en pacientes con DAC múltiple. A pesar de que en nuestro caso optamos inicialmente por la anticoagulación, ante la progresión del hematoma y la afectación a nivel de las AV que tienen un mayor riesgo de extensión intracraneal y por tanto de hemorragia subaracnoidea, en ausencia de eventos o lesiones isquémicas hasta ese momento, decidimos el cambio a tratamiento antiagregante por tratarse de la opción, a nuestro juicio, más segura. De todas formas, es necesario aclarar que no hay datos que permitan afirmar que el tratamiento anticoagulante contribuye a la extensión del hematoma, algo que debe ser bastante excepcional como muestran los trabajos en los que se analiza la administración de trata-

miento fibrinolítico intravenoso en pacientes con DAC<sup>12</sup>. Son necesarios, por tanto, nuevos estudios que aclaren cuál es el manejo más idóneo desde el punto de vista farmacológico en los pacientes con afectación de múltiples arterias cervicales.

En conclusión, los médicos debemos estar atentos a la posibilidad de una DAC múltiple y simultánea. Se debe investigar el antecedente infeccioso reciente y vigilar de cerca a estos pacientes para prevenir complicaciones potencialmente fatales considerando la evolución de la cefalea como un marcador clave de la evolución de la enfermedad.

## Estándares éticos

Para la publicación de este caso se ha obtenido el consentimiento informado del paciente.

## Bibliografía

1. Daroff RB, Jankovic J, Mazziotta JC, Pomeroy SL. *Bradley's neurology in clinical practice*. 7th ed. London, New York, Oxford, Philadelphia, St Louis Sydney Toronto: Elsevier; 2016.
2. DeBette S, Leys D. Cervical-artery dissections: predisposing factors, diagnosis, and outcome. *Lancet Neurol*. 2009;8:668–78.
3. Béjot Y, Aboa-Eboulé C, DeBette S, Pezzini A, Tatlisumak T, Engelter S, et al. Characteristics and outcomes of patients with multiple cervical artery dissection. *Stroke*. 2014;45:37–41.
4. Arnold M, De Marchis GM, Stapf C, Baumgartner RW, Nedeltchev K, Buffon F, et al. Triple and quadruple spontaneous cervical artery dissection: presenting characteristics and long-term outcome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2009;80:171–4.
5. Guillon B, Berthet K, Benslamia L, Bertrand M, Bousser M-G, Tzourio C. Infection and the risk of spontaneous cervical artery dissection. *Stroke*. 2003;34:e79–81.
6. Grau AJ, Brandt T, Buggle F, Orberk E, Mytilineos J, Werle E, et al. Association of cervical artery dissection with recent infection. *Arch Neurol*. 1999;56:851–6.
7. Genius J, Dong-Si T, Grau AP, Lichy C. Postacute C-reactive protein levels are elevated in cervical artery dissection. *Stroke*. 2005;36:e42–4.
8. Forster K, Poppert H, Conrad B, Sander D. Elevated inflammatory laboratory parameters in spontaneous cervical artery dissection as compared to traumatic dissection. *J Neurol*. 2006;253:741–5.
9. Compter A, Schilling S, Vaineau CJ, Goeggel-Simonetti B, Metso TM, Southerland A, et al. Determinants and outcome of multiple and early recurrent cervical artery dissections. *Neurology*. 2018;91:e769–80.
10. Hassan AE, Zacharatos H, Mohammad YM, Tariq N, Vazquez G, Rodriguez GJ, et al. Comparison of single versus multiple spontaneous extra- and/or intracranial arterial dissection. *J Stroke Cerebrovasc Dis*. 2013;22:42–8.
11. CADISS, trial investigators Markus H, Hayter E, Levi C, Feldman A, Venables G, et al. Antiplatelet treatment compared with anticoagulation treatment for cervical artery dissection (CADISS): a randomised trial. *Lancet, Neurol*. 2015;14:361–7.
12. Zinkstok SM, Engelter ST, Gensicke H, Lyrer PA, Ringleb PA, Artto V, et al. Safety of thrombolysis in stroke mimics: Results from a multicenter cohort study. *Stroke*. 2013;44:1080–4.

E. Rodríguez-Castro<sup>a,\*</sup>, A.J. Mosqueira<sup>b</sup>,  
M. Santamaría-Cadavid<sup>a</sup>  
y S. Arias-Rivas<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Unidad de Ictus, Servicio de Neurología, Hospital Clínico Universitario de Santiago de Compostela, Santiago de Compostela, España

<sup>b</sup> Unidad de Neurorradiología, Servicio de Radiología, Hospital Clínico Universitario de Santiago de Compostela, Santiago de Compostela, España

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [emiliorcastro@gmail.com](mailto:emiliorcastro@gmail.com)  
(E. Rodríguez-Castro).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2019.12.003>

## Papel de la maniobra de Carnett en el diagnóstico de un síndrome por atrapamiento del nervio cutáneo anterior confundido con un trastorno por síntomas somáticos: a propósito de un caso



### Role of Carnett's maneuver in the diagnosis of an anterior cutaneous nerve syndrome confused with a somatic symptom disorder: A case report

El dolor crónico es un síntoma que afecta a un 17,25% de los adultos en España, y que con frecuencia asocia otras comorbilidades como ansiedad (40,62%) o depresión (24,43%) y alteración en las funciones de órganos cardiovasculares o gastrointestinales<sup>1</sup>. Muchos pacientes con dolor persistente, sin una base biológica aparente, son diagnosticados de trastorno por síntomas somáticos (TSS) y tras ser estudiados por diferentes especialistas, a menudo son derivados a neurología para un estudio exhaustivo.

Los síntomas somáticos han sido clásicamente estudiados desde un punto de vista psiquiátrico, pero dada su prevalencia creciente en la práctica clínica es importante su conocimiento. EL DSM-V diferencia entre el TSS con dolencias predominantemente somáticas y el TSS con características de dolor. Este diagnóstico se caracteriza por «síntomas somáticos acompañados de pensamientos, sentimientos y comportamientos anormales en respuesta a estos síntomas»<sup>2</sup>. En la mayoría de estos casos subyace la incapacidad de verificar objetivamente los síntomas expresados por el paciente, y el clínico se encuentra en una situación incómoda que requiere un juicio sobre la veracidad del relato del paciente<sup>3</sup>. Por ello, es importante conocer las técnicas de examen físico que pueden ayudar a diferenciar un daño orgánico o funcional antes de etiquetar los hallazgos físicos observados como no orgánicos<sup>4</sup>. Aquí presentamos el caso de un paciente con TSS y depresión que posteriormente fue diagnosticado de síndrome de atrapamiento del nervio cutáneo anterior (ACNES). El paciente ha otorgado su consentimiento informado por escrito para la publicación del caso.

### Presentación del caso

Presentamos el caso de un varón español de 37 años con dolor abdominal generalizado, más intenso a punta de dedo en la región paraumbilical derecha, y cansancio de

5 meses de evolución que se inició tras despertarse con sensación de disnea e importante astenia, que le impedía trabajar. Fue estudiado por medicina interna, con un cortisol de 4,89 µg/ml (normal: 5,0-17,9) que se normalizó tras la administración de ACTH, por lo que fue tratado con hidrocortisona 5 mg/día, mejorando la astenia, pero permaneció el dolor abdominal y la sensación de cansancio. Tres meses después, el paciente fue derivado al centro de salud mental, donde fue diagnosticado de depresión y tratado con mirtazapina 30 mg/día, con mejoría anímica al mes. Además, fue derivado a digestivo y a endocrinología dado, que persistía el dolor abdominal, quienes no encontraron alteraciones intestinales, a pesar de que se sospechó un síndrome de colon irritable que fue descartado, y una RMN de la hipófisis junto a nuevos test hormonales descartaron enfermedad endocrina. Finalmente fue derivado a neurología. A pesar de que una TAC abdominopélvica fue normal, en la exploración física la maniobra de Carnett fue positiva, por lo que sospechamos un ACNES. Bajo control ecográfico y lidocaína al 1% se realizó el bloqueo anestésico mediante inyecciones en los puntos gatillo del nervio cutáneo anterior, lo que mejoró notablemente el dolor abdominal. Fue infiltrado de nuevo la semana siguiente quedando asintomático. Tras 7 meses permanece asintomático, se han retirado los psicofármacos y su vida ha vuelto a la normalidad.

### Discusión

El ACNES es un síndrome poco conocido que produce dolor abdominal crónico en la región ventral cuya incidencia es desconocida, pero que estudios recientes cifran en uno de cada 2.000 pacientes<sup>5</sup>. El dolor se produce en las ramas terminales de los nervios intercostales 8-12 que quedan atrapados en los músculos abdominales produciendo un dolor neuropático crónico y de difícil diagnóstico. La ausencia de pruebas complementarias y de un examen físico estandarizado para el diagnóstico de este síndrome<sup>6</sup> conlleva que muchos de estos pacientes sean diagnósticos de TSS y sean remitidos a distintos especialistas, retrasando el diagnóstico en meses o años<sup>7</sup>. Los antidepresivos no son efectivos dado que el origen del dolor es mecánico. No obstante, se han descrito unos criterios diagnósticos (tabla 1) que resultan muy útiles para llegar a un correcto diagnóstico junto con TAC/RMN abdominal normales y ausencia de signos de inflamación e infección a nivel cutáneo local. Para reproducir el dolor asociado con el atrapamiento del nervio cutáneo anterior, se debe realizar el signo de Carnett, descrito en 1926<sup>8,9</sup> y que es muy útil para diferenciar el dolor somático del dolor abdominal visceral. Para realizar la prueba de Carnett, se le pide al paciente que se acueste y señale el área específica