

lar anterior. A este nivel no se realizó ningún procedimiento de embolización.

Con respecto al tratamiento del infarto medular no existen unas recomendaciones específicas claras ni respaldadas por evidencia científica consistente. El uso de la fibrinólisis es limitado, debido a que en muchas ocasiones existe un desconocimiento del inicio exacto de la clínica, lo que conlleva un retraso diagnóstico y la pérdida de ventana terapéutica. En el momento actual solo existen casos clínicos aislados descritos en los que se ha utilizado con éxito⁸.

El pronóstico de forma global es pobre y se estima que entre un 11-46% de los pacientes consiguen una marcha independiente durante el seguimiento⁹. Los factores de mal pronóstico funcional corresponden con la gravedad de la clínica inicial, sexo femenino, edad avanzada y ausencia de mejoría en las primeras 24h. Aunque el pronóstico en muchos casos no es favorable, la recuperación funcional puede ocurrir meses o incluso años después de la lesión, lo que hace imprescindible un tratamiento rehabilitador precoz y continuado en el seguimiento de estos pacientes.

En conclusión, con el caso clínico presentado queríamos resaltar que, aunque el infarto medular es una complicación infrecuente de la embolización bronquial, es importante su conocimiento, así como el de los factores de riesgo anatómicos y técnicos asociados, con el fin de su prevención, dado que implica un mal pronóstico funcional a largo plazo y con importantes tasas de morbilidad asociada. No obstante, una vez instaurado, el tratamiento rehabilitador continuado de estos pacientes puede conseguir una mejoría funcional incluso meses o años después de la lesión.

Bibliografía

- Patel S, Naidoo K, Thomas P. Spinal cord infarction: A rare cause of paraplegia. *BMJ Case Rep.* 2014, <http://dx.doi.org/10.1136/bcr-2013-202793>.
- Millichap J, Sy B, Leacock R. Spinal Cord Infarction with Multiple Etiologic Factors. *JGIM.* 2007;22:151–4, <http://dx.doi.org/10.1007/s11606-006-0029-8>.
- Bilbao JI, Martínez-Cuesta A, Urtasun F, Cosín O. Complications of embolization. *Semin Intervent Radiol.* 2006;23:126–42, <http://dx.doi.org/10.1055/s-2006-941443>.
- Varkey B, Krishna BP, Padmanabhan S, Baby J. Spinal cord infarction after bronchial artery embolization. *Ann Indian Acad Neurol.* 2016;19:156–7, <http://dx.doi.org/10.4103/0972-2327.175494>.
- Maki H, Shimohira M, Hashizume T, Kawai T, Nakagawa M, Ozawa Y, et al. Visualization of the spinal artery by CT during embolization for pulmonary artery pseudoaneurysm. *Pol J Radiol.* 2016;81:382–5, <http://dx.doi.org/10.12659/PJR.897975>.
- Brown AC, Ray CE. Anterior spinal cord infarction following bronchial artery embolization. *Semin Intervent Radiol.* 2012;29:241–4, <http://dx.doi.org/10.1055/s-0032-1326936>.
- Ishikawa H, Hara M, Ryuge M, Takafuji J, Youmoto M, Akira M, et al. Efficacy and safety of super selective bronchial artery coil embolisation for haemoptysis: A single-centre retrospective observational study. *BMJ Open.* 2017;7:e014805, <http://dx.doi.org/10.1136/bmjopen-2016-014805>.
- Restrepo L, Guttin JF. Acute Spinal Cord Ischemia during Aortography Treated with Intravenous Thrombolytic Therapy. *Tex Heart Inst J.* 2006;33:74–7.
- Salvador de la Barrera S, Barca-Buyo A, Montoto-Marqués A, Ferreiro-Velasco ME, Cidoncha-Dans M, Rodríguez-Sotillo A. Spinal cord infarction: Prognosis and recovery in a series of 36 patients. *Spinal Cord.* 2001;39:520–5, <http://dx.doi.org/10.1038/sj.sc.3101201>.

M. Ramírez Torres*, C. Lastras Fernández y J. Rodríguez Pardo

Servicio de Neurología, Hospital Universitario La Paz, IdiPAZ, Instituto de Investigación Sanitaria, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ramirez.34@gmail.com

(M. Ramírez Torres).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.03.004>

Síndrome de opsoclono-mioclono secundario a intoxicación por duloxetina



Opsoclonus-myoclonus syndrome secondary to duloxetine poisoning

Sr. Editor:

El síndrome de opsoclono-mioclono (SOM) es extremadamente infrecuente, estimándose una incidencia de $1/5 \times 10^6$ habitantes/año¹. Clínicamente se caracteriza por la presencia de 3 síntomas cardinales: opsoclono, mioclonías y ataxia. El opsoclono se define como movimientos oculares involuntarios, rápidos, conjugados, en forma de sacadas y en múltiples direcciones. Las mioclonías suelen localizarse en extremidades o tronco y se caracterizan por ser típicamente posturales o inducidas por el movimiento. La ataxia puede ser consecuencia de mioclonías intensas o debidas

afectación cerebelosa. Otros síntomas asociados descritos son disfunción cognitiva, alteraciones del comportamiento, encefalopatía, alteración de pares craneales (IV, V, VI) o convulsiones².

El SOM en niños es bien conocido y su etiología más frecuente es la paraneoplásica en el contexto de un neuroblastoma³. En adultos sus causas más frecuentes según la literatura son la paraneoplásica, parainfecciosa o idiopática, siendo excepcionales las causas metabólicas o tóxicas⁴.

Presentamos un caso de SOM secundario a intoxicación por duloxetina.

Mujer de 44 años con antecedente de síndrome ansioso depresivo en tratamiento con lorazepam. La paciente es derivada por el servicio de emergencias tras presentar cuadro de inicio al despertar, consistente en visión borrosa, movimientos involuntarios y visión de «personas encapuchadas en su domicilio que según refiere la paciente «le han intoxicado». A su llegada se encontraba hemodinámicamente estable, aunque taquicárdica. En la exploración de las funciones superiores la paciente se encontraba vigil,

orientada en tiempo y persona y desorientada en espacio, inatenta, con lenguaje escaso sin elementos disfásicos con comprensión conservada y destacando un discurso reiterativo («me han intoxicado»). En la exploración de los pares craneales destacaban unas pupilas midriáticas con reflejo fotomotor escaso y la presencia de movimientos oculares rápidos, conjugados y en múltiples direcciones compatibles con opsoclonos. Por último, se objetivaron movimientos mioclónicos de acción en extremidades superiores, inferiores y tronco ([material adicional](#), [video](#)). En cuanto a las pruebas complementarias urgentes, se realizó analítica con hemograma y bioquímica, gasometría venosa, sistemático de orina, tóxicos en orina y resonancia magnética cerebral. Siendo el resultado de todas ellas normal o negativo, salvo por la presencia de leucocitosis con neutrofilia y de benzodiazepinas positivas en orina. De forma urgente además fue realizada una punción lumbar para estudio de líquido cefalorraquídeo, cuya bioquímica no mostró alteraciones significativas y fueron recogidas muestras para estudio microbiológico, bandas oligoclonales, anatomía patológica, anticuerpos anti-neuronales y onconeuronales. La paciente ingresó con el diagnóstico de SOM asociado a ideación delirante y alucinaciones visuales. Se inició de forma empírica tratamiento con corticoides a altas dosis (metilprednisolona 1 g intravenoso durante 5 días). Así mismo, se llevó a cabo búsqueda de tumor primario mediante la realización de marcadores tumorales cuyo resultado fue negativo y mediante la realización de mamografía y tomografía computarizada toraco-abdomino-pélvica que no mostraron lesiones sugestivas de malignidad. El resultado serológico, así como la anatomía patológica, los anticuerpos onconeuronales y anti-neuronales llevados a cabo en LCR resultaron negativos.

Tras 5 días del ingreso, la paciente mejora progresivamente hasta la resolución de los síntomas, reconociendo en ese momento la toma de 3 cajas de duloxetina 30 mg con intención autolítica la noche previa al inicio de los síntomas. En dicho momento se extraen niveles de duloxetina resultando en 371 ng/ml (20-80).

La etiología tóxica como origen del SOM es excepcional. En la literatura encontramos casos asociados a intoxicación por amitriptilina, cocaína, litio, fenitoína, fenelzina, ciclosporina, ipilimumab/nivolumab, cefepime y venlafaxina^{5–13}. Hasta donde conocemos, este es el primer caso en el que se reporta asociación entre intoxicación por duloxetina y SOM, y el segundo, tras la venlafaxina, en relación con inhibidores de la recaptación de la serotonina y noradrenalina (IRSN). En cuanto a la fisiopatología de SOM en estos casos de origen tóxico no está clara. De manera general se ha hipotetizado que el origen de este síndrome puede tener lugar en una disfunción de las neuronas omnipausa en el núcleo del rafe interposición² o una desinhibición del núcleo fastigio del cerebelo¹⁴, sin embargo, estos núcleos no son serotoninérgicos ni noradrenérgicos. Necpál y Skorvanek¹³ hipotetizaron en el reporte de SOM asociado a venlafaxina que dicho caso podría producirse en el contexto de un síndrome serotoninérgico ya que el paciente presentaba alteraciones en la esfera mental, neuromuscular y autonómica. Por otra parte el paciente de nuestro caso mostró también alteraciones en estas tres esferas: mental (psicosis), neuromuscular (opsoclonos-mioclono) y autonómica (taquicardia, midriasis); reforzando así la hipótesis establecida por Necpál y Skorvanek¹³. Por otra parte, aunque

en el neuroblastoma existe un aumento de producción de catecolaminas¹⁵, existe muy poca evidencia de la participación de un efecto noradrenérgico en la génesis del SOM. Por ello, aunque no se puede descartar por completo, el origen noradrenérgico parece menos probable en estos casos.

En conclusión, aunque infrecuente, la etiología tóxica es de gran importancia dentro del diagnóstico etiológico del SOM. El caso presentado supone el segundo caso de SOM reportado en relación con IRSN, pudiendo estar el origen de mismo en relación con un síndrome serotoninérgico.

Anexo. Material adicional

Se puede consultar material adicional a este artículo en su versión electrónica disponible en [doi:10.1016/j.nrl.2020.05.009](https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.05.009).

Bibliografía

- Pang KK, de Sousa C, Lang B, Pike MG. A prospective study of the presentation and management of dancing eye syndrome/opsoclonus-myoclonus syndrome in the United Kingdom. *Eur J Paediatr Neurol*. 2010;14:156–61.
- Wong A. An update on opsoclonus. *Curr Opin Neurol*. 2007;20:25–31.
- Gorman MP. Update on diagnosis, treatment, and prognosis in opsoclonus-myoclonus-ataxia syndrome. *Curr Opin Pediatr*. 2010;22:745–50.
- Klaas JP, Ahlskog JE, Pittock SJ, Matsumoto JY, Aksamit AJ, Bartleson JD, et al. Adult-onset opsoclonus-myoclonus syndrome. *Arch Neurol*. 2012;69:1598–607.
- Au WJ, Keltner JL. Opsoclonus with amitriptyline overdose. *Ann Neurol*. 1979;6:87.
- Elkadoudi-Pijnenburg Y, Van Vliet AG. Opsoclonus, a rare complication of cocaine misuse. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1996;60:592.
- Cohen WJ, Cohen NH. Lithium carbonate, haloperidol, and irreversible brain damage. *JAMA*. 1974;230:1283–1288.
- Dehaene I, Van Vleymen B. Opsoclonus induced by phenytoin and diazepam. *Ann Neurol*. 1987;21:216.
- Fisher CM. Ocular flutter. *J Clin Neuroophthalmol*. 1990;10:155–6.
- Kang HG, Park SK, Wang SJ, Oh SY, Ryu HU. Opsoclonus-myoclonus syndrome following long-term use of cyclosporine. *Clin Toxicol (Phila)*. 2018;56:373–6.
- Maller B, Peguero E, Tanvetyanon T. Ipilimumab/Nivolumab-related Opsoclonus-Myoclonus-Ataxia Syndrome Variant in a Patient with Malignant Pleural Mesothelioma. *J Immunother*. 2018;41:411–2.
- Lizarraga KJ, Heros DO, Adams D, Lang AE, Kanner AM. Opsoclonus-myoclonus-encephalopathy induced by cefepime. *J Neurol Sci*. 2019;396:33–5.
- Necpál J, Skorvanek M. Opsoclonus-myoclonus ataxia syndrome secondary to venlafaxine intoxication. *J Neurol Sci*. 2017;372:19–20.
- Helmchen C, Rambold H, Sprenger A, Erdmann C, Binkofski F. fMRI study. Cerebellar activation in opsoclonus: An fMRI study. *Neurology*. 2003;61:412–5.
- Pranzatelli MR. The neurobiology of the opsoclonus-myoclonus syndrome. *Clin Neuropharmacol*. 1992;15:186–228.

J. Trigo López^{a,*}, E. Martínez Pías^a, A. Carrancho García^b
y M.I. Pedraza Hueso^a

^a *Servicio de Neurología, Hospital Clínico Universitario de Valladolid, Valladolid, España*

^b *Servicio de Oftalmología, Complejo Asistencial Universitario de León, León, España*

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: javiertrigolopez@gmail.com
(J. Trigo López).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2020.05.009>