

PROGRESOS de OBSTETRICIA Y GINECOLOGÍA

www.elsevier.es/pog



CASO CLÍNICO

Neuralgia del pudendo: algoritmo de manejo diagnóstico y terapéutico desde una unidad del dolor



Martín Avellanal^{a,c,*}, Antonio Ferreiro^b, Gonzalo Diaz-Reganon^{a,c},
Alejandro Orts^{a,c} y Lucio Gonzalez-Montero^{a,c}

^a Clínica del Dolor, Hospital Universitario de Madrid y Hospital Sanitas La Moraleja, Madrid, España

^b Servicio de Radiología, Hospital Universitario de Madrid, Madrid, España

^c Consultores en Dolor, Madrid, España

Recibido el 2 de diciembre de 2013; aceptado el 12 de noviembre de 2014

Disponible en Internet el 29 de diciembre de 2014

PALABRAS CLAVE

Neuralgia del pudendo;
Dolor perineal;
Tratamiento del dolor

KEYWORDS

Pudendal neuralgia;
Chronic pelvic pain;
Pain management

Resumen

Objetivo: Presentar un algoritmo de manejo del dolor perineal crónico severo con sospecha de neuralgia del trigémino.

Casos: Se presentan 3 casos clínicos con etiología y evolución clínica diversa.

Discusión: Análisis de los criterios diagnósticos y tratamientos vigentes. Evaluación de los casos a la luz del algoritmo de diagnóstico y tratamiento propuesto.

© 2013 SEGO. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Pudendal neuralgia: Algorithm for diagnostic and therapeutic management in a pain unit

Abstract

Objective: To describe a new algorithm for the management of severe chronic perineal pain/pudendal neuralgia.

Cases: We report 3 clinical cases with different etiologies and outcomes.

Discussion: We analyze the diagnostic criteria and treatments and evaluate the rational management of these patients according to the algorithm.

© 2013 SEGO. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El dolor perineal constituye uno de los retos diagnósticos y terapéuticos con los que se enfrentan múltiples especialistas como ginecólogos, urólogos y proctólogos. Los casos remitidos a la Unidades del Dolor suelen ser casos con dolor severo e

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: mavellanal@telefonica.net (M. Avellanal).

incapacitante y que han recorrido ya múltiples especialistas con las consiguientes pruebas complementarias, tratamientos médicos, rehabilitación y, a veces, intervenciones quirúrgicas.

Su prevalencia no está bien estudiada ya que parte de la dificultad de poder utilizar una terminología exacta y común. La variedad de síntomas: dolor anal, vaginal, clitoriano o peneano, perineal, dolor neuropático/inflamatorio, y la presencia o no de sintomatología miccional, sintomatología simpática, tenesmo vesical o rectal, incontinencia hacen que los términos empleados para catalogarla puedan ser tan amplios como la misma sintomatología: dolor perineal, dolor pelvirrectal, neuralgia del pudendo, vulvodinia, proctalgiya, dispareunia, cistitis intersticial, trigonitis...

Dejando a un lado los cuadros que cursan con afectación miccional, como las cistitis intersticiales y vejigas neurógenas, que merecen un capítulo aparte por su complejidad, el manejo del resto de los dolores perineales se encuentra poco sistematizado en la literatura y cuando lo está parece centrado en resaltar las bondades de algún tratamiento muy específico¹.

Hace ya casi 50 años² que se indicó que muchos de los dolores crónicos del periné de causa no filiada podían estar en relación con una neuralgia del pudendo. Los pacientes suelen referir dolor perineal, más frecuentemente unilateral, en el área de inervación del nervio pudendo, casi siempre en el área específica de alguna de sus 3 ramos terminales, que cubren el área perianal, vulvovaginal y clitoriana en la mujer, y perianal escroto-rafe medio y dorsal del pene en el varón.

En nuestra Clínica del Dolor valoramos a unos 130 nuevos pacientes/mes, de los cuales los casos de dolor perineal constituyen algo más del 5%; la gran mayoría son mujeres entre 30 y 60 años, el dolor suele ser severo con EVA basal > 7, y acuden remitidas por otros especialistas, como urólogos, neurólogos y ginecólogos.

En este artículo, queremos presentar 3 casos clínicos de dolor perineal severo en mujeres con sospecha de neuralgia del pudendo y evolución clínica muy diversa. Junto a ello presentamos en la discusión un algoritmo de manejo diagnóstico y terapéutico del paciente con dolor perineal crónico severo con sospecha de neuralgia del pudendo, que creemos ayuda a abordar de manera racional estos casos tan complejos.

Breve recuerdo anatómico

El nervio pudendo se forma en el plexo sacro por la fusión de ramas de S2, S3 y S4. Entra en la región glútea acompañado de la arteria pudenda interna y de la vena homónima por debajo del músculo piramidal, y sale de la pelvis por el agujero ciático mayor para volver a entrar tras rodear la espina isquiática cubierto por el ligamento sacrotuberoso, y ya en la región perineal, a través del agujero ciático menor, acceder al canal pudendo o de Alcock. El canal pudendo está formado por la prolongación lateral de la fascia del obturador interno y limitado medial y cranealmente por la fosa isquiorrectal y lateralmente por el obturador interno y el isquion. En el canal se encuentra el nervio rodeado de los vasos y tejido graso. En más del 50% de los casos forma un tronco único, pero puede presentarse como 2 ramos (36%), 3 e incluso 4³.

A lo largo del canal el nervio, se divide en sus 3 ramos terminales: 1) *nervio rectal inferior* que inerva la región perianal, esfínter anal y elevador del ano; 2) *nervio perineal* que inerva la mayor parte del escroto o labios mayores y la mucosa de la uretra y labios menores, así como inervación motora de los músculos isquiocavernoso, bulboesponjoso, perineal transverso superficial y profundo, y el esfínter de la uretra, y 3) *nervio dorsal del pene o del clítoris*, que inerva el dorso del pene o del clítoris.

Casos clínicos

Caso 1

Mujer de 57 años, que refiere dolor en la región perineal, de predominio derecho, de 2 años y medio de evolución, sin claro antecedente previo. Ha tenido un curso oscilante en este tiempo, sin llegar nunca a desaparecer, y resulta invalidante desde hace 4 meses. No presenta sintomatología urinaria ni rectal. Lo refiere como «un peso» localizado en el periné derecho, acompañado de disestesias en la hemivulva derecha y crisis de proctalgiya. Empeora en sedestación sentada pero también la despierta por la noche.

Valorada por varios ginecólogos, urólogos y proctólogos con múltiples pruebas de imagen, solo se objetiva una lesión del fascículo puborrectal del elevador del ano en un estudio ecográfico, por lo que fue remitida a fisioterapia sin referir mejoría.

Seguía tratamiento farmacológico con AINE, tramadol, paracetamol y complejo de vitamina B con alivio parcial.

En la RM de suelo pélvico solicitada en la primera visita se objetivó la existencia de un trayecto fistuloso en cara posterior de ano, con extensión paramedial derecha hasta la grasa subcutánea (fig. 1). La paciente fue remitida a cirugía general e intervenida del seudodivertículo/fístula, con desaparición total de la sintomatología.

Caso 2

Mujer de 34 años con cuadro de dolor perineal muy severo, de predominio izquierdo, de un año de evolución. No refiere ningún desencadenante claro, tan solo historia de candidiasis de repetición. Asocia dispareunia, dolor al defecar y, en ocasiones, disuria, no polaquiuria ni tenesmo vesical o rectal. Empieza a añadir dolor en la cara interna del muslo. A la exploración, marcadas alodinia e hiperalgesia. Anímicamente, muy afectada: dolor severo (EVA 7/10), con marcada repercusión en su vida diaria (Lattinen 17/20).

Ha sido valorada por múltiples especialistas y está en tratamiento con AINE, tramadol, gabapentina, duloxetine y fisioterapia. Aporta EMG de pudendos, con afectación de predominio izquierdo y, en especial, del ramo rectal.

Se solicitó RM de suelo pélvico y valoración por el psicólogo de la Unidad, que objetivó un importante trastorno mixto ansioso-depresivo reactivo, iniciándose tratamiento con psicoterapia.

En la RM de suelo pélvico se objetivó un área seudoespiculada adyacente a la pared posterolateral izquierda de la vagina, superficial al elevador del ano y anterolateral al ano, con intenso realce tras la administración de contraste y alta

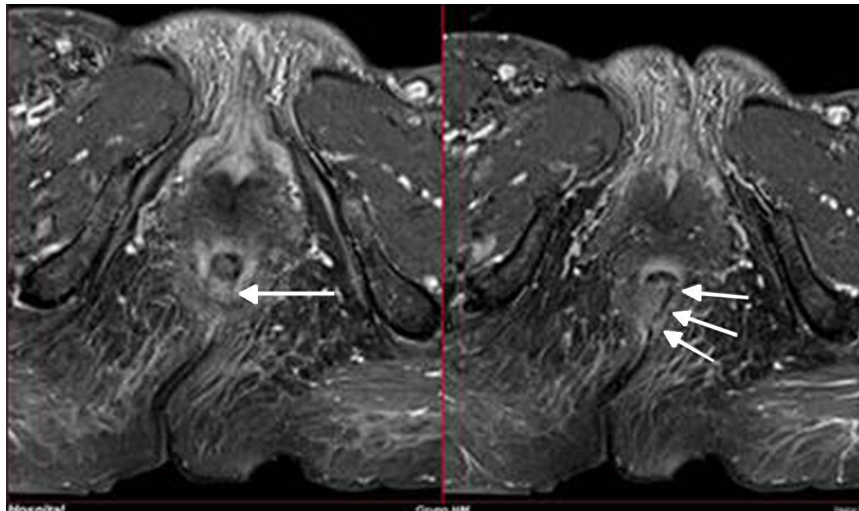


Figura 1 Esta paciente muestra una trayectoria fistulosa desde la pared posterior del ano, caudal al músculo elevador, con extensión cutánea hasta la región interglútea paramedial dcha.

probabilidad de afectación de los ramos inferiores del pudendo, correspondiente a tejido fibroinflamatorio (fig. 2).

Ante esos hallazgos, se programó bloqueo del pudendo izquierdo con neuroestimulador para incidir especialmente en el ramo rectal y vaginal, inyectando una mezcla de anestésico (lidocaína con bupivacaína) + hialuronidasa 600 UI + acetónido de triamcinolona 40 mg. Se incluyó también un bloqueo del nervio obturador ipsolateral en el mismo acto. La paciente marchó sin dolor, con el área de dolor habitual anestesiada.

A los pocos días, tuvo que volver a la consulta por exacerbación del dolor habitual hasta hacerse insoportable e impedirle trabajar o cualquier otra actividad. Se le había explicado que durante los primeros días podía presentar más dolor del habitual pero que en pocos días iría desapareciendo, pero ante lo exagerado del cuadro y el transcurso de 5 días con la misma sintomatología, se realizó un nuevo estudio analítico y de imagen para descartar complicaciones infecciosas. Se añadió tratamiento con un opioide mayor indicado para dolor neuropático (tapentadol) a dosis bajas.

Valorada 2 semanas después la sintomatología, había ido cediendo y se fue retirando la medicación progresivamente. A los 5 meses, fue reevaluada refiriendo la casi completa desaparición del dolor (EVA 1/10), con la consiguiente recuperación anímica.

Caso 3

Mujer de 35 años que acude en 2001 remitida por su ginecólogo por un cuadro de dolor perineal derecho de 3 años de evolución y que pone en relación con un parto eutócico. El dolor es continuo, de intensidad moderada, pero con episodios de exacerbación con descargas lancinantes, que suele coincidir con la micción o algunos movimientos de la pierna. Sintomatología urinaria ocasional, en posible relación con infecciones del tracto urinario incidentales. No sintomatología rectal. Severa dispareunia. Anímicamente estable. Las crisis la obligan a acudir a urgencias y se acompañan de marcada distensión abdominal. Aporta RM de pelvis normal, RM columna lumbosacra normal, ecografías normales,

estudios urológicos normales. Se ha realizado resección quirúrgica del área de fibrosis en torno a la episiotomía, con mejoría transitoria. No es posible realizar EMG del pudendo por intenso dolor. En tratamiento inicial con AINE, tramadol y varios coadyuvantes. Estudiada y tratada por múltiples especialistas y Unidades del Dolor en España y Francia.

La RM de suelo pélvico objetivó un área de fibrosis en periné derecho próximo al isquion compatible con fibrosis o neuroma del nervio pudendo. Se realizó un bloqueo del mismo con anestésico + corticoide depot y radiofrecuencia pulsada, con mejoría de un mes y reaparición de los síntomas. Valorada simultáneamente por otros especialistas, realizaron resección quirúrgica del neuroma con marcada mejoría sintomática de 2 meses de duración para luego recaer con mayor intensidad (fig. 3). También fue intervenida de una enfermedad pélvica inflamatoria derecha, objetivada en una nueva prueba de imagen, realizándose anexectomía derecha, pero sin mejorar la sintomatología de base.

La frecuencia de los síntomas se fue agravando progresivamente, con muy escasa respuesta al tratamiento farmacológico con altas dosis de opioides mayores y multitud de coadyuvantes. Ha requerido largos períodos de hospitalización para controlar la sintomatología. Las maniobras de Valsalva tan exageradas con la queria contener el dolor lancinante descrito como un «cable de alta tensión metido en la vagina» le provocaron un hematoma subdural diagnosticado durante un ingreso por presentar diplopía por parálisis del VI par izquierdo.

Durante estos años, se han realizado todo tipo de estudios y tratamientos, incluyendo neurólisis con alcohol y radiofrecuencia convencional (80° C) (mejorías de 2 meses como máximo), bloqueos y radiofrecuencia pulsada del ganglio de la raíz dorsal de S2, S3 y S4, bloqueos caudales, bloqueo del nervio pudendo en el canal de Alcock bajo control ecográfico, analgesia epidural mediante catéter DuPen retrógrado (muy buen control del dolor durante 8 meses, hasta que hubo que retirarlo por fibrosis), tratamientos con lidocaína por vía iv (nula respuesta), ketamina iv (nula respuesta), lacosamida iv (respuesta parcial a dosis máximas, pero con marcados secundarismos), estimulador de raíces sacras

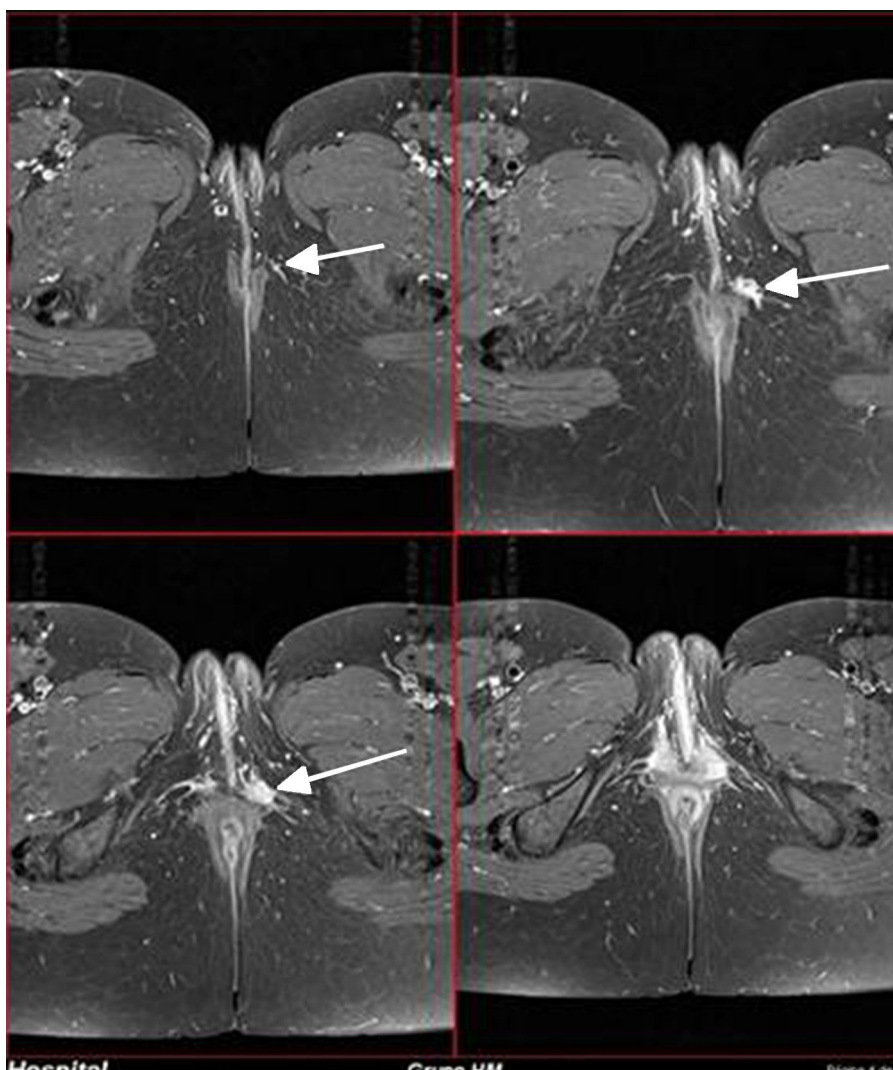


Figura 2 Paciente con lesión hiperrealzante tras la introducción de CIV en secuencias T1 de RM, con aspecto fibroinflamatorio/cicatricial, en la mitad izquierda de periné, lateral y profunda al límite vulvovaginal, que con alta probabilidad, por su localización y extensión en profundidad, afecta a los ramos rectal y vaginal del pudendo.

(ineficaz), estimulación periférica con electrodo subcutáneo (ineficaz)... (fig. 4). Se desestimó intentar la descompresión quirúrgica del canal Alcock por 2 especialistas diferentes.

Tras el implante de una bomba de analgesia intratecal implantada con dosis moderadas de cloruro mórfico, consiguió volver a trabajar y ha estado bien controlada durante año y medio. Recientemente, ha requerido ingreso de 3 semanas por mal control analgésico en posible relación con un cuadro de hiperalgesia inducida por opioides que ha obligado a bajar drásticamente la dosis de cloruro mórfico y modificar la posología de infusión continua a bolus añadiendo altas dosis de neuromoduladores para poder controlar el cuadro.

Discusión

Los dolores perineales crónicos severos catalogados como neuralgias del pudendo constituyen un conjunto de cuadros clínicos abigarrados en los que la sintomatología neuropática

puede estar presente en mayor o menor medida en función de la causa desencadenante. De antemano, hemos querido dejar de lado los cuadros con sintomatología miccional o rectal preponderante, como las cistitis intersticiales o los casos de dolor tenesmal rectal secundarios a radioterapia, que constituyen entidades clínicas específicas.

Es fundamental intentar establecer un diagnóstico etiológico antes de empezar un tratamiento que no sea puramente sintomático y, para ello, aparte de la historia clínica cuidadosa y la exploración, desempeñan un papel imprescindible la RM de suelo pélvico y el estudio neurofisiológico (tabla 1).

La RM de suelo pélvico realizada por un radiólogo informado sobre la patología de la paciente orienta de manera decisiva el diagnóstico y el tratamiento subsiguiente. El hallazgo de tejido fibroinflamatorio en el territorio de distribución del pudendo o sus ramas, la presencia de fístulas o divertículos rectales que han pasado inadvertidos con otras pruebas, o los pequeños desgarros de fibras en la musculatura del suelo pélvico son hallazgos frecuentes, pero requieren el



Figura 3 Corte coronal, secuencia potenciada en T1 de la pelvis, en la que se identifica una extensa lesión lineal con trayectoria entre la apófisis isquiática y el músculo elevador del ano en la hemipelvis derecha, compatible con cirugía previa complicada. Es una lesión que coincide con la distribución teórica de múltiples ramas del nervio pudendo derecho.

compromiso del radiólogo para realizar un estudio cuidadoso de la zona. Del mismo modo, el estudio electromiográfico del nervio pudendo requiere un neurofisiólogo experimentado en la técnica, la cual a su vez es más costosa por requerir un electrodo especial en cada caso.

Sin embargo, la mayoría de los estudios se fundamentan en criterios clínicos subjetivos. Ya en 2006 un grupo de trabajo multidisciplinar estableció unos criterios clínicos (Criterios de Nantes) que incluyen: 1) dolor en la distribución

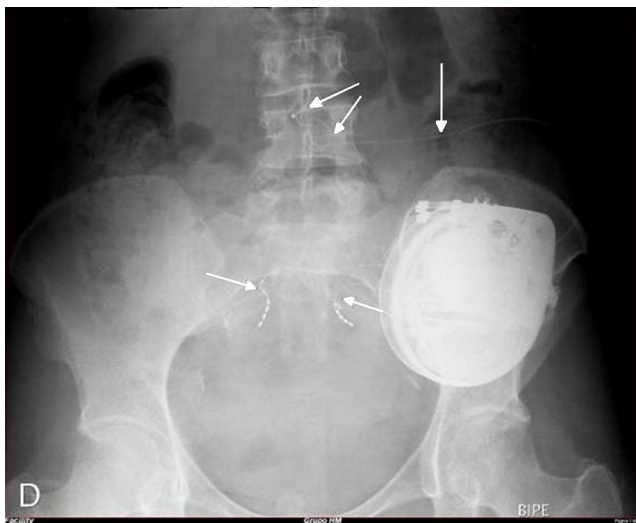


Figura 4 Radiografía AP simple de pelvis para mostrar electrodos de estimulación, raíces sacras y catéter intratecal.

Tabla 1 Posibles etiologías de neuralgia del pudendo propuestas

Parto
Cirugía incontinencia
Bartolinitis
Fístula anal/absceso isquiorrectal
Traumatismo (ciclismo)
Cirugía del prolapso (vaginal o rectal)
Neuritis infecciosas (herpes)
Cirugía de cadera
Atrapamiento (síndrome de Alcock)
Endometriosis

anatómica del nervio pudendo; 2) agravamiento de los síntomas en sedestación; 3) el dolor no le despierta por la noche; 4) ausencia de déficit sensoriales en la exploración clínica, y 5) mejoría del dolor con un bloqueo diagnóstico del pudendo⁴. Se consideraban criterios de exclusión la existencia de dolor limitado al área coccígea, glútea o hipogástrica, dolor paroxístico o prurito y el hallazgo de otras causas por técnicas de imagen.

En nuestra práctica clínica, estos criterios resultan de poca utilidad: una paciente puede tener patología hemorroidal asociada y referir también dolor nocturno, y en la exploración la mayoría de las pacientes tienen unas severas alodinia e hiperalgesia que dificultan cualquier exploración, más que los déficits sensoriales descritos. De hecho, en la mayoría de los casos, cuando realizamos un bloqueo del pudendo tenemos que hacerlo bajo sedación iv moderada para que puedan tolerar el procedimiento estimulando correctamente cada ramo nervioso afectado. Tampoco se refieren a un dato clínico que suele ser característico: la mayoría de los casos suelen ser unilaterales o, por lo menos, de distribución asimétrica. Los casos de dolor bilateral y simétrico casi siempre obedecen a patología miofascial secundaria a trastornos de adaptación (estrés, ansiedad, etc.). En este sentido, tenemos que recurrir en muchas ocasiones a la valoración por el psicólogo de la Unidad de los trastornos de ansiedad y depresión encubiertos.

En el algoritmo que manejamos en los pacientes que llegan con dolor perineal crónico severo, la historia clínica (con valoración psicológica si hay sospecha clínica) y los resultados de la RM que siempre realizamos (la tomografía computarizada suele dar poca información), complementados con el EMG, suelen permitir encuadrar a la paciente en una de estas entidades de sospecha clínica: 1) neuralgia del pudendo propiamente dicha; 2) patología anorrectal no detectada, y 3) síndrome miofascial puro (fig. 5).

En el primer caso, se suele iniciar la secuencia de tratamientos ordenada descrita empezando por el bloqueo con neuroestimulador del nervio o de la rama afectada con anestésico, corticoide depot e hialuronidasa en función de los hallazgos de la RM. Cuando existe una neuropatía establecida, la radiofrecuencia pulsada realizada a nivel periférico o en el ganglio dorsal de las raíces sacras S2 a S4 puede paliar los síntomas. Si existe sospecha de un componente simpático mantenido, se pueden realizar bloqueos del ganglio impar o del plexo hipogástrico. En caso de sospecha de atrapamiento del nervio pudendo, se realiza el bloqueo Dx bajo control ecográfico en el canal de Alcock y, en caso de

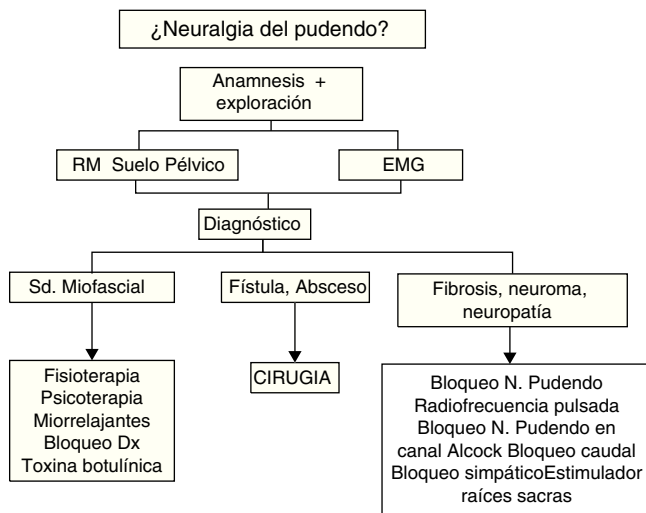


Figura 5 Algoritmo de manejo diagnóstico y terapéutico del paciente con dolor perineal crónico severo con sospecha de neuralgia del pudendo.

confirmación y mala respuesta a los tratamientos conservadores, se remite para valoración de cirugía descompresiva⁵. El estimulador de raíces sacras se propone como último recurso en casos resistentes a todos los tratamientos (en nuestra experiencia, sin buena respuesta en estos casos).

No son pocos los casos en los que se ha detectado patología anorrectal activa con pruebas anteriores normales, incluyendo exploración proctológica y hasta ecoendoscopia. En estos casos, la selectividad de la RM con contraste para detectar patología inflamatoria es de especial ayuda diagnóstica. En nuestra serie, casi todos los pacientes remitidos a cirugía han sido intervenidos con éxito, desapareciendo la sintomatología.

Probablemente, los casos más complejos de tratar sean aquellos en los que la RM es normal, el estudio neurofisiológico también y presentan una marcada hipertonia muscular, casi siempre bilateral y simétrica, con hiperalgesia. En estos casos, el abordaje mixto fisio y psicoterapéutico es la base del tratamiento. Nosotros podemos ayudar con un tratamiento farmacológico bien pautado. Los bloqueos musculares con anestésico local pueden ayudar puntualmente y la toxina botulínica es una opción en los casos más recalcitrantes.

Hemos querido presentar 3 casos seleccionados para ilustrar las luces y sombras del manejo de esta patología. En el caso 1, una pequeña fístula anal inadvertida tenía incapacitada a una mujer de 57 años y el tratamiento quirúrgico resolvió el cuadro. En el segundo caso, un posible absceso no tratado en su día pudo dar lugar a la perpetuación de un granuloma inflamatorio muy aparatoso en la confluencia recto-vaginal con importante afectación de los ramos rectal y vaginal. La respuesta a un simple bloqueo selectivo de cada ramo y a la infiltración del granuloma con hialuronidasa resultó espectacular, y la exacerbación de la clínica en los

días inmediatamente posteriores, hasta que empezó a actuar el corticoide, habla de la importancia de la afectación. Por último, el tercer caso es un ejemplo de tratamiento azaroso, descoordinado y fracasado. Ha sido remitida a múltiples especialistas para contrastar opiniones y, hasta la fecha, es la única paciente en la que hemos tenido que recurrir a la analgesia intratecal con opioides como única alternativa paliativa, lo que sin duda constituye un fracaso en estos casos.

En definitiva, creemos que el manejo del paciente con dolor perineal crónico severo requiere realizarse de forma ordenada y sistemática, intentando descubrir las causas desencadenantes siempre que sea posible y aplicando los tratamientos en consecuencia. Presentamos un algoritmo en el que el papel del radiólogo y del neurofisiólogo consultores es capital para establecer un tratamiento racional de este cuadro.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Bautrant E, de Bisschop E, Vaini-Elies V, Massonnat J, Aleman I, Buntinx J, et al. Modern algorithm for treating pudendal neuralgia: 212 cases and 104 decompressions. *J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris)*. 2003;32:705–12.
2. Neill ME, Swash M. Chronic perianal pain: An unsolved problem. *J R Soc Med*. 1982;75:96–101.
3. Gabrielli C, Olave E. Aspectos anatómicos y topográficos del nervio pudendo en la región glútea. *Int J Morphol*. 2011;29:168–73.
4. Stav K, Dwyer PL, Roberts L. Pudendal neuralgia. Fact or fiction? *Obstet Gynecol Surv*. 2009;64:190–9.
5. Mollo M, Bautrant E, Rossi-Seignert A-K, Collet S, Boyer R. Evaluation of diagnostic accuracy of Colour Duplex Scanning, compared to electroneuromyography, diagnostic score and surgical outcomes, in pudendal neuralgia by entrapment: A prospective study on 96 patients. *Pain*. 2009;142:159–63.