

7. Tomizawa Y, Hoshino Y, Sasaki F, Kurita N, Kawajiri S, Noda K, et al. Diagnostic utility of splenic lesions in a case of legionnaires' disease due to *Legionella pneumophila* serogroup 2. *Intern Med.* 2015;54:3079–82.
8. Imai N, Yagi N, Konishi T, Serizawa M, Kobari M. Legionnaires' disease with hypoperfusion in the cerebellum and frontal lobe on single photon emission computed tomography. *Intern Med.* 2008;47:1263–6.
9. Johnson DH, Modica M, Coleman R, Sanders CV, Lopez FA. Clinical case of the month: a 64 year-old woman presenting with fever, confusion, ophthalmoplegia and pneumonia. *J La State Med Soc.* 2016;168:177–9.
10. Halperin JJ. Nervous system abnormalities and legionnaire's disease. *Infect Dis Clin North Am.* 2017;31:55–68.

V. López-Marina^{a,*}, R. Alcolea García^b, G. Pizarro Romero^c, T. Rama Martínez^d y N. Costa Bardají^e

^a *Medicina Familiar y Comunitaria, Equipo de Atención Primaria de Piera, Piera, Barcelona, España*

^b *Medicina Familiar y Comunitaria, Equipo de Atención Primaria del Besós, Barcelona, España*

^c *Medicina Familiar y Comunitaria, Equipo de Atención Primaria de Badalona 6-Llefiá, Badalona, Barcelona, España*

^d *Medicina Familiar y Comunitaria, Equipo de Atención Primaria del Masnou, Masnou, Barcelona, España*

^e *Medicina Familiar y Comunitaria, Equipo de Atención Primaria de Río de Janeiro, Barcelona, España*

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: victor_lopezmarina@yahoo.com (V. López-Marina).

<https://doi.org/10.1016/j.semerg.2018.05.008>
1138-3593/

© 2018 Sociedad Española de Médicos de Atención Primaria (SEMERGEN). Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Hipersensibilidad a antiinflamatorios no esteroideos, alergia a alimentos y síndrome de activación mastocitaria: relevancia del estudio alergológico completo y breve revisión del tema, a propósito de 2 casos



Hypersensitivity to non-steroidal anti-inflammatory drugs, food allergy and mast cell activation syndrome: Relevance of the full allergy testing panel and a brief review of the subject, including two clinical case reports

Los antiinflamatorios no esteroideos (AINE) son un grupo de fármacos muy comunes, que incluye el ácido acetilsalicílico (ASA) o el ibuprofeno, que además no necesitan ser recetados. El ser alérgico a AINE conlleva que, tras su administración, se experimente una reacción que puede afectar a un solo órgano, como la piel, el aparato respiratorio o el digestivo, o a dos o más de ellos, lo que se conoce como anafilaxia. Estas reacciones pueden aparecer en pocos min o tras varias h después de la administración del fármaco, y pueden ser muy graves.

Dentro del espectro de reacciones de hipersensibilidad a AINE, se puede ser, en grandes líneas, o bien alérgico a un único grupo (por ejemplo arilpropiónicos, pirazolonas etc.) o a todos ellos, lo que se denomina «intolerancia a aspirina y resto de AINE»¹.

Una entidad a tener en cuenta es la implicación de los AINE en las reacciones alérgicas producidas por alimentos. En este escenario hay 2 opciones: se puede tratar de una alergia alimentaria latente que se desenmascara con la administración concomitante de un AINE, que actúa como cofactor; o bien que el paciente tenga dos alergias distintas², al alimento y al AINE respectivamente. Los «cofactores» son aquellos elementos que favorecen la reacción alérgica a un alimento, disminuyendo el umbral de tolerancia habitual; o sea la misma cantidad del

alimento previamente tolerada en ausencia del cofactor, desencadena una reacción alérgica en su presencia. Los cofactores más frecuentes son alcohol, ejercicio físico, AINE, infecciones.

Los alimentos más frecuentemente implicados en reacciones favorecidas por cofactores son el trigo, cuyo alérgeno implicado es la omega-5-gliadina³, y en el sur de Europa los alimentos vegetales, siendo su alérgeno responsable la proteína transportadora de lípidos (en inglés *lipid transfer protein*)⁴.

La ausencia de síntomas con la toma por separado de los alérgenos retrasa el diagnóstico, de aquí la importancia de conocer esta entidad, y derivar al alergólogo para un estudio completo.

Presentamos 2 pacientes con múltiples reacciones alérgicas tras la administración de AINE, sin clínica con alimentos, en los cuales el estudio alergológico mostró resultados sorprendentes.

Paciente 1: varón de 61 años, sin antecedentes de interés, en 1987 presentó urticaria y angioedema que fue tratado con diclofenaco tópico y piroxicam por vía oral. Posteriormente evitó los AINE hasta el 2007, cuando refiere episodio de anafilaxia (broncoespasmo, urticaria y angioedema labial), tratado con ibuprofeno, 600 mg, por vía oral. En 2008 otros 2 episodios de urticaria tras la toma de 1 gramo de paracetamol. Finalmente en 2013 presentó nueva anafilaxia similar a la previa, tras indometacina, 50 mg por vía oral, por el cual es remitido a Alergología.

Caso 2: mujer de 55 años, con asma y poliposis nasosinusal, que refiere 2 episodios de broncoespasmo tras administración de aspirina (ASA) 500 mg en 1986, e ibuprofeno, 600 mg en 2009. En 2013 presentó anafilaxia (urticaria, broncoespasmo, rinitis, mareo) tratado con dexketoprofeno, 25 mg. En 2014 presentó nuevo broncoespasmo tras aplicación de colirio con diclofenaco, por el cual es remitida a Alergología.

Según los protocolos de intolerancia a AINE y anafilaxia, realizamos análisis completos, pruebas cutáneas y provocaciones con AINE⁵.

Tabla 1 Resumen de las pruebas realizadas

Pruebas	Paciente 1	Paciente 2
Hemograma	Normal	Normal
Bioquímica (función renal y hepática)	Normal	Normal
Sistemático de orina	Normal	Normal
Factores de complemento (C3 y C4)	Normal	Normal
Estudio celiacía (ac. antitransglutaminasa)	Normal	Normal
Prick-test gluten	+	+
IgE específica omega-5-gliadina (kU/l)	4,67	3,72

Tabla 2 Estudio ampliado del síndrome de activación mastocitaria

	Paciente 1	Paciente 2
Triptasa sérica basal (mcg/l)	13/14	13,4/15,8
Densitometría ósea	Normal	Normal
Ecografía abdominal	Normal	Normal

Los principales resultados se resumen en la [tabla 1](#). Ambos pacientes se diagnostican de alergia al gluten, e inician dieta exenta de gluten.

Al paciente 1 se le realizaron provocaciones orales con todos los AINE implicados, a dosis plenas, según las recomendaciones de la EAACI⁵ con resultados negativos (haciendo dieta sin gluten); descartándose así cualquier alergia selectiva o intolerancia a AINE.

La paciente 2 presentó una provocación oral positiva con etoricoxib (prurito y habones generalizados a los 30 min de la dosis de 60 mg), diagnosticándose de intolerancia a AINE con clínica mixta cutánea y respiratoria.

Dada la elevación de la triptasa sérica basal en dos ocasiones, rehistoriamos a ambos pacientes, insistiendo en las manifestaciones típicas de activación mastocitaria (flushing, urticaria, angioedema, inyección conjuntival, prurito nasal, congestión nasal, hipotensión, presíncope, síncope, taquicardia, sibilancias, náuseas, vómitos, diarrea y dolor abdominal recurrente tipo cólico) y ampliamos el estudio según las indicaciones de la Red española para el estudio de mastocitosis, con resultados dentro de la normalidad ([tabla 2](#))⁶. Ambos pacientes se diagnostican por tanto de síndrome de activación mastocitaria (SAM). No se realizó biopsia de médula ósea por scores de la Red española para el estudio de mastocitosis bajos (−2 y −3 puntos respectivamente)⁶. Actualmente realizamos seguimiento clínico y analítico cada 6 meses. Ambos permanecen asintomáticos, realizando dieta sin gluten, sin precisar tratamiento antimediador⁶.

Diagnósticos finales: urticaria/anafilaxia por AINE dependiente de la ingesta de gluten y SAM; siendo la segunda paciente diagnosticada además de intolerancia a AINE con enfermedad respiratoria y urticaria exacerbadas por AINE.

Presentamos dos casos de alergia alimentaria oculta, diagnosticada partiendo de la sospecha de alergia a AINE. Este diagnóstico se confirmó en la segunda paciente, entre otros, ilustrando la complejidad de esta patología: los pacientes que la padecen pueden tener alergia bien solo al alimento, al AINE o a las dos cosas. El SAM, además, fue un diagnóstico sorpresa en ambos casos, es otra gran desconocida fuera de las consultas de Alergia, pero en estos casos explica aún más las reacciones subyacentes⁷.

El SAM es una entidad clínica de etiología y expresión clínica variable y compleja, cuyos criterios diagnósticos son:

1. Afectación de dos o más sistemas que produce síntomas relacionados con la liberación de mediadores de mastocitos.
2. Disminución de los síntomas con tratamiento antimediador: antihistamínicos, antileucotrienos, cromoglicato disódico.
3. Aumento de triptasa basal en más de dos determinaciones, o una triptasa basal mayor o igual de 15 en una ocasión.

Descartada la lesión cutánea sugerente de mastocitosis, los SAM se dividen en clonales o no clonales; según el score de la Red española para el estudio de mastocitosis, se evita realizar biopsia de médula ósea en caso de baja probabilidad de clonalidad en muchos pacientes⁶.

La anafilaxia por trigo inducida por ASA² es una entidad clínica caracterizada por síntomas típicos de alergia con la toma de AINE más la ingesta de alimentos con gluten. Frecuentemente, estos pacientes toleran los dos alérgenos por separado.

Dentro de las fracciones del trigo³, es la omega 5 gliadina la que se ha visto implicada como alérgeno en la alergia a alimentos mediada por ejercicio físico o AINE.

Varios grupos japoneses^{8,9} demostraron la relación entre niveles de gliadina en sangre y síntomas inducidos por ejercicio físico o ASA en pacientes con alergia inducida por trigo dependiente de la realización de ejercicio⁹. El ASA altera la unión intercelular de la mucosa intestinal, aumentando la permeabilidad, lo que favorece el transporte de gliadina y su aumento en plasma de manera dosis dependiente¹⁰.

Cada vez hay más publicaciones acerca de reacciones alérgicas con alimentos y toma de AINE⁴. Por tanto, en foros especializados se considera que hay bastante evidencia para que en todo paciente con una reacción con AINE se investigue sobre la alergia alimentaria, aún más si la clínica es de anafilaxia.

En todo paciente que presente reacciones con antiinflamatorios no esteroideos se debería investigar la implicación de alimentos, y viceversa. Para ello es necesario derivar al paciente para realizar un estudio completo por parte de un especialista, dada la potencial gravedad de las futuras reacciones.

Confidencialidad de los datos

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

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Kowalski ML, Makowska JS, Blanca M, Bavbek S, Bochenek G, Bousquet J, et al. Hypersensitivity to nonsteroidal anti-inflammatory drugs (NSAIDs) – classification, diagnosis and management: review of the EAACI/ENDA and GA2LEN/HANNA. *Allergy*. 2011;66:818–29.
2. Wong GK, Huissoon AP, Goddard S, Collins DM, Krishna MT. Wheat dependent exercise induced anaphylaxis: is this an appropriate terminology? *J Clin Pathol*. 2010;63:814–7.
3. Tatham AS, Shewry PR. Allergens to wheat and related cereals. *Clin Exp Allergy*. 2008;38:1712–26.
4. Pascal M, Muñoz-Cano R, Reina Z, Palacín A, Vilella R, Picado C, et al. Lipid transfer protein syndrome: clinical pattern, cofactor effect and profile of molecular sensitization to plant-foods and pollens. *Clin Exp Allergy*. 2012;42:1529–39.
5. Nizankovska-Mogilmicka E, Bochenek G, Mastalerz L, Swierczynska M, Picado C, Scadding G, et al. EAACI/GA2LEN guideline: aspirin provocation test for diagnosis of aspirin hypersensitivity. *Allergy*. 2007;62:1111–8.
6. Sánchez-Muñoz L, Morgado JM, Álvarez-Twose I, Matito A, García-Montero AC, Teodosio C, et al. Diagnosis and classification of mastocytosis in non-specialized versus reference centres: a Spanish Network on Mastocytosis (REMA) study on 122 patients. *Br J Haematol*. 2016;172:56–63.
7. Pascal M, Muñoz-Cano R, Milà J, Sanz ML, Diaz-Perales A, Sánchez-López J, et al. Nonsteroidal anti-inflammatory drugs enhance IgE-mediated activation of human basophils in patients with food anaphylaxis dependent on and independent of non-steroidal anti-inflammatory drugs. *Clin Exp Allergy*. 2016;46:1111–9.
8. Matsukura S, Aihara M, Sugawara M, Kunimi Y, Matsuki M, Inoue Y, et al. Two cases of wheat-dependent anaphylaxis induced by aspirin administration but not by exercise. *Clin Exp Dermatol*. 2010;35:233–7.
9. Matsuo H, Morimoto K, Akaki T, Kaneko S, Kusatake K, Kuroda T, et al. Exercise and aspirin increase levels of circulating gliadin peptides in patients with wheat-dependent exercise-induced anaphylaxis. *Clin Exp Allergy*. 2005;35:461–6.
10. Matsuo H, Kaneko S, Tsujino Y, Honda S, Kohno K, Takahashi H, et al. Effects of non-steroidal anti-inflammatory drugs (NSAIDs) on serum allergen levels after wheat ingestion. *J Dermatol Sci*. 2009;53:241–3.

D. Blanco^{a,*}, V. Ruiz Sancho^a, R. Barranco^a,
C. Fernández^a e I. Bobolea^b

^a Servicio de Alergología, Hospital Universitario 12 de Octubre, i+12, Madrid, España

^b Servicio de Neumología y Alergia respiratoria, ICR, Hospital Clínic, Barcelona, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: dblancogg@gmail.com (D. Blanco).

<https://doi.org/10.1016/j.semerg.2018.04.006>
1138-3593/

© 2018 Sociedad Española de Médicos de Atención Primaria (SEMERGEN). Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Aneurisma sacular de vena yugular externa trombosada: a propósito de un caso



Thrombosed external jugular vein sacular aneurysm: Presentation of a case

Introducción

Las varices aneurismáticas saculares de vena yugular, también llamadas aneurismas de la yugular o flebectasia yugular son una rara entidad descrita por primera vez por Gruber en 1875. Aunque mayoritariamente asintomáticas, sus potenciales complicaciones y su forma de presentación deben estar presentes en el acto clínico diario.

Caso clínico

Presentamos el caso de una mujer de 42 años, sin antecedentes de interés, que acude a la consulta de atención primaria por bultoma laterocervical derecho que refiere presentar desde hace 4-5 días. Dicho bultoma no se modifica

con maniobras de Valsalva. No presenta sintomatología asociada, síndrome constitucional, ni antecedentes de interés. A la exploración física presenta consistencia blanda, fija y no dolorosa a la compresión. No se identifican adenopatías ni otras tumoraciones asociadas. Se solicita estudio ecográfico al servicio de radiodiagnóstico del hospital de referencia en el que se observa (fig. 1A) lesión ovalada bien delimitada, y superficial en contacto con estructura vascular y con flujo en su interior. Ante la sospecha de lesión vascular se completa el estudio con tomografía computarizada (TC) en fases arterial y venosa torácica y cervical (figs. 1C y D), sin identificar lesiones intratorácicas, y confirmando la existencia de una variz aneurismática sacular dependiente de yugular externa derecha, sin otros hallazgos asociados.

A los 3 meses consulta de nuevo porque la tumoración se ha endurecido y es dolorosa de forma espontánea y brusca, con eritema local asociado (fig. 2) siendo derivada al servicio de urgencias para ecografía. En dicho estudio se objetiva (fig. 1B) aumento de la tumoración sin registro doppler en su interior y con contenido ecogénico sugestivo de trombosis. La paciente es tratada por el servicio de cirugía vascular con bemparina sódica 7.500 UI 10 días seguido de 3.500 UI 20 días en espera de cirugía como técnica terapéutica preventiva.