

Open Acces



SÍNDROME DE TOLOSA-HUNT I NOCARDIOSI PULMONAR EN UN PACIENT IMMUNOCOMPETENT

Purificación Jordana Ferrando¹, Camilo Eduardo Castro Alvarado², Andrés Alfredo Martínez Arias³, Maria Carmen Ruiz Marti n¹, Anais Degouveia Franco², Beatriz Romero González²

¹ Metge de família. CAP Les Indianes

² Resident, CAP Les Indianes

³ Metge de família, Hospital de Terrassa

Adreça per a correspondència:

Purificación Jordana Ferrando

Adreça electrònica: purijordana@hotmail.com

RESUM

Es presenta el cas d'un pacient de 57 anys que va presentar-se amb una cefalea retroocular dreta de 2-3 setmanes d'evolució, constant i sense resposta a analgèsia convencional que va ser visitat a oftalmologia per una disminució del 20% de l'agudeza visual amb diplopia horitzontal que desapareixia amb la mirada monocular, amb una ressonància compatible amb la síndrome de Tolosa-Hunt. El pacient presentà millora clínica de l'oftalmoplegia i cefalea amb corticoides, però un mes després va desenvolupar dolor lumbar, astènia i expectoració marronosa, objectivant-se a la radiografia una condensació ben delimitada a la pleura que afectava lòbul mig dret amb una lleugera neutrofilia a l'anàlítica. La tomografia pulmonar mostrà afectació parenquimatososa perifèrica en segment basal de lòbul superior dret i lòbul mig dret amb afectació pleural. La punció-aspiració d'una adenopatia hilar obtingué material purulent amb creixement de *Nocardia*. Es tracta de un cas poc freqüent de nocardiosi en un pacient immunocompetent, ja que en la majoria de casos, aquest germe afecta pacients immunodeprimits.

SÍNDROME DE TOLOSA-HUNT Y NOCARDIOSIS PULMONAR EN UN PACIENTE INMUNOCOMPETENTE

Presentamos el caso de un paciente de 57 años que presentó con un dolor de cabeza retroocular de 2-3 semanas de evolución, constante y sin respuesta a analgesia convencional que se visitó en oftalmología por una reducción del 20% de la agudeza visual con diplopía horizontal que desaparecía con la mirada monocular, con una resonancia compatible con el síndrome de Tolosa-Hunt. El paciente presentó mejoría clínica de la oftalmoplejía y cefalea con corticoides, pero un mes más tarde desarrolló dolor de espalda, astenia y expectoración marrón, objetivándose a la radiografía una condensación bien definida en la pleura que afectaba al lóbulo medio con una ligera neutrofilia en el análisis. La tomografía pulmonar demostró afectación parenquimatososa periférica en el segmento basal del lóbulo superior derecho y del lóbulo medio derecho con implicación pleural.

El cultivo de la punción-aspiración obtuvo material purulento con crecimiento de *Nocardia*. Este es un caso raro de nocardiosis en un paciente immunocompetente, ya que en la mayoría de casos, este germe afecta a pacientes immunodeprimidos.

TOLOSA-HUNT SÍNDROME AND PULMONARY NOCARDIOSIS IN AN IMMUNOCOMPETENT PATIENT

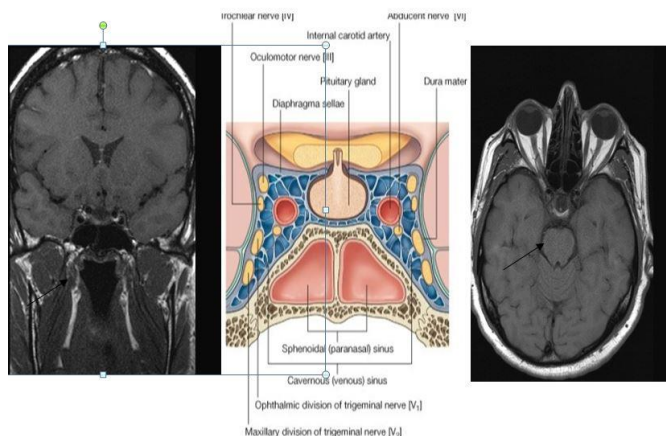
We present the case of a 57-year-old patient who presented a constant retroocular headache of 2-3 weeks and unresponsive to conventional analgesia. He was seen in ophthalmology due to a 20% reduction in visual acuity with horizontal diplopia that vanished with monocular gaze, with an MRI compatible with Tolosa-Hunt syndrome. The patient presented clinical improvement of ophthalmoplegia and headache with corticosteroid therapy, but a month later developed back pain, asthenia, cough with brownish sputum, with a radiography showing a well-defined condensation in the pleura affecting the middle lobe with slight neutrophilia in the blood test. The chest CT scan showed peripheral parenchymal condensation in the basal segment of the right upper lobe and right middle lobe with pleural involvement. Fine puncture-aspiration of hilar lymphadenopathy obtained purulent material with nocardial growth in culture. This is a rare case of nocardiosis in an immunocompetent patient, since in most cases, this infection affects immunocompromised patients.

CAS CLÍNIC

Es tracta d'un home de 57 anys amb els antecedents d'obesitat, hipercolesterolèmia en tractament farmacològic des de 2010, hipertensió arterial en tractament farmacològic des de 2010 i afectació d'òrgans diana en forma d'hipertrofia ventricular esquerra amb funció sistòlica conservada i hipertrofia benigna de pròstata. El pacient va venir a la consulta per cefalea retro-ocular dreta de 2-3 setmanes d'evolució sense llagrimaig, constant i sense resposta a analgèsia convencional. Va ser visitat a oftalmologia, objectivant-se una disminució del 20% de l'agudeses visual. Posteriorment presentà diplopia horitzontal que desaparegué amb la mirada monocular.

Ingressà a l'hospital per a estudi. L'anàlítica mostrà els següents valors: Hb 16,2 g/dl; plaquetes 177 cèl·lules*10⁹/L; leucòcits 6,24*10⁹/L; VSG 9; TP 1; TTP 1,01; fibrinogen 3,73 g/L; ferro 157 ng/dl; ferritina 364,5 ng/ml; glucèmia 109 mg/dl; creatinina 0,87 mg/dl; proteïnes totals 65 g/L; colesterol 217 mg/dl; colesterol-HDL 59 mg/dl; colesterol-LDL 122 mg/dl; triglicèrids 181 mg/dl; bilirubina 0,7 mg/dl; TGP 29 U/L; TGO 19 U/L; GGT 42 U/L; fosfatases alcalines 70 U/L; Na 140 mmol/L; K 4,5 mmol/l; PCR 0,10 mg/dl; TSH 1,46 mU/L; T4 lliure 1,02 ng/dl; ECA 60 U/L. El proteïnograma fou normal i les serologies del Treponema i VIH, així com els anticossos antinuclears, els antimúscul llis, els antimitocondrials i anticèl·lules parietals van ser negatius. Es va fer una TAC cranial, que va ser normal, i la ressonància de crani va mostrar una discreta asimetria entre ambdós sins cavernosos, amb lleuger engruiximent difús dret, d'aspecte infiltratiu, essent compatible amb la síndrome de Tolosa-Hunt (Figura 1).

Figura 1. Ressonància de crani en què pot observar-se discreta asimetria entre ambdós sins cavernosos amb lleuger engruiximent difús dret (procés infiltratiu)

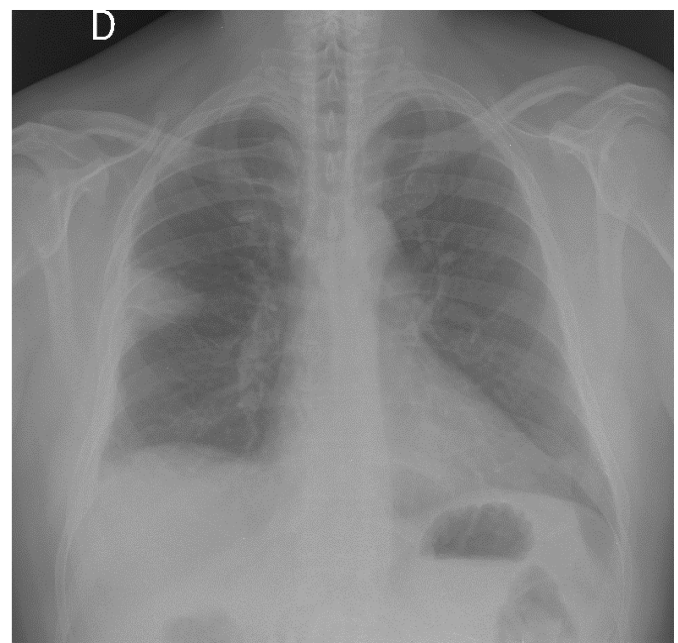


El pacient va presentar millora clínica franca de l'oftalmoplegia i la cefalea, amb curació també radiològica als 3 mesos amb tractament amb corticoides. Un mes després, però, va acudir al centre d'urgències per dolor lumbar, astènia

i esput marronós. Es va fer una radiografia de tòrax en què es visualitzà condensació ben delimitada a la pleura cissural, que afectava lòbul mig dret (Figura 2). Davant l'evolució tòrpida amb antibioteràpia empírica el pacient ingressà per a estudi. A l'anàlítica sanguínia destacava una lleu neutrofília (16,91 cèl·lules*10⁹; 92,9%) i una PCR de 2,60 ng/dl.

Es va practicar TAC pulmonar que va mostrar una afectació parenquimatosa perifèrica en el segment basal del lòbul superior dret i del lòbul mig dret amb afectació pleural de la cissura dreta i del hiatus esofàgic. Es va realitzar una punció-aspiració amb agulla fina (PAAF) guiada per eco-endoscòpia de l'adenopatia hiliar amb sortida de líquid purulent. S'obtingueren mostres per a cultiu, que foren positives per al germen *Nocardia*, pel que es va establir el diagnòstic d'abscess pulmonar per *Nocardia*. L'evolució de la nocardiosi pulmonar va ser bona amb trimetoprim-sulfametoxazole. El pacient es troba asimptomàtic en l'actualitat.

Figura 2. Radiografia de tòrax del pacient 2 mesos després on pot observar-se condensació del lòbul mig dret



DISCUSSIÓ

La síndrome de Tolosa-Hunt és una malaltia infreqüent amb una incidència anual d'1 cas/1.000.000 habitants. Es caracteritza per dolor periorbitari o en hemicrani acompanyat d'oftalmoplegia. L'etiologia és desconeguda; tanmateix, hi ha proves de què està involucrada una inflamació granulomatosa del si carotídi o una fissura orbitària superior. Aquesta inflamació provoca una pressió i secundàriament afectació de les estructures del si cavernós (nervis cranials III, IV, V i VI)¹.

La síndrome de Tolosa-Hunt va ser descrita per primera vegada en el 1954 per Eduardo Tolosa, neurocirurgià espanyol, que va descriure un cas d'un home de 47 anys amb

dolor retro-orbitari unilateral associat a disfunció ipsilateral dels nervis oculomotors i de la branca oftàlmica del trigemín. L'anatomia patològica va mostrar una reacció inflamatòria granulomatosa que infiltrava la porció intracavernosa de la caròtida interna i dels nervis cranials adjacents. Posteriorment, en el 1961, William Edgar Hunt, neuròleg nord-americà, va presentar 6 casos compatibles amb la descripció de Tolosa, formulant els primers criteris diagnòstics, afegint la bona resposta al tractament esteroïdal. En el 2004 s'afegiren els criteris radiològics².

Els criteris diagnòstics de la síndrome de Tolosa-Hunt de la tercera edició de la *International Classification Headaches*, són els següents³:

Descripció: Dolor orbitari unilateral associat a parèsia d'un o més dels parells cranials III, IV y/o VI causada per inflamació granulomatosa en el si cavernós, fissura orbital superior o òrbita.

Criteris diagnòstics:

- A. Cefalea hemicranial que compleix els criteris.
- B. Els dos següents:
 - 1. Inflamació granulomatosa del si cavernós, fissura orbital superior o òrbita, demostrada per ressonància o biòpsia.
 - 2. Parèsia ipsilateral d'un o més dels parells cranials III, IV i/o VI.
- C. Evidència causal demostrada per:
 - 1. La cefalea ha precedit la parèsia dels parells cranials II, IV i/o VI durant 2 setmanes o menys o han estat simultànies,
 - 2. La cefalea està localitzada ipsilateralment al voltant del front o l'ull.
- D. No compleix altres criteris diagnòstics d'ICHD-3.

Els factors que desencadenen el procés inflamatori són encara desconeguts⁴. Aquesta síndrome no té predisposició per gènere i és més freqüent al voltant dels 44 anys. Els parells cranials més afectats són el tercer (79%), el sisè (45%), el quart (32%) i el cinquè (25%). El compromís de múltiples parells afecta el 70% dels casos⁴. S'han descrit casos de la síndrome de Tolosa-Hunt associats a immunodepressió i infecció també per *Actinomyces*⁵ i casos de meningitis per *Nocardia* que debutaren com oftalmoplegia dolorosa⁶. Alguns autors suggereixen que la resolució de les imatges després del tractament amb corticoides sistèmics ha de ser considerat diagnòstic de síndrome de Tolosa-Hunt. No obstant això, els corticoides poden millorar clínicament i radiològica altres processos malignes com el limfoma o

benignes, com vasculitis, per la qual cosa es requereix criteri clínic⁷.

Es tractaria, doncs, d'un diagnòstic d'exclusió, una vegada descartat tumors, causes vasculares o d'altres causes d'inflamació en la regió del si cavernós o fissura orbital superior⁷. Després de la desaparició de la clínica, les troballes radiològiques triguen diversos mesos a resoldre's^{7,8}. La síndrome de Tolosa-Hunt pot recidivar^{7,8}.

El pacient va debutar amb un quadre compatible amb una síndrome de Tolosa-Hunt de la qual va millorar amb tractament esteroïdal. Un mes després el pacient inicia símptomes respiratoris que post-estudi es diagnostica d'abscess pulmonar per *Nocardia*.

Nocardia és un microorganisme sapròfit que es contagia per via aèria i es pot propagar al sistema nerviós central i altres òrgans, de forma oportunista. Això succeeix en individus amb immunodepressió com trasplantats, pacients amb sida, cirròtics, diabètics, alcohòlics, o en tractament amb corticoides. També s'han descrit nocardiosis en pacients immunocompetents sense cap factor de risc⁹⁻¹². En un 50-70% dels casos de nocardiosi en pacients immunodeprimits hi està involucrada l'afectació pulmonar i en el 28-56% hi ha disseminació hematològica, que té una alta morbimortalitat¹³. Les lesions trobades radiològicament amb més freqüència són meningitis, cerebritis, granulomes i abscessos cerebrals. *Nocardia* no es pot aïllar en el líquid cefalorraquídi¹². Els limfòcits T són els encarregats de generar una resposta immune i del desenvolupament de granulomes i micetomes¹⁴. En el nostre cas és remarcable el fet de què un pacient immunocompetent de base pateixi una infecció que afecta principalment pacients immunodeprimits¹⁴⁻¹⁶.

BIBLIOGRAFIA

1. Okawa S, Sugawara M, Takahashi S, Otani T, Hashimoto M, Kusunoki S, et al. Tolosa-hunt syndrome associated with cytomegalovirus infection. *Intern Med.* 2013;52(10):1121-4.
2. Zimmermann-Paiz MA. Síndrome de Tolosa-Hunt precedido de parálisis facial. Reporte de un caso. *Rev Mex Oftalmol.* 2008;82:42-5.
3. *International Classification Headaches, 3rd Edition. The International Classification of Headache.* <https://www.ichd-3.org>
4. Díaz C, Aedo I, González Hernández. Síndrome de Tolosa-Hunt: Revisión a partir de un caso clínico. *Revista Memoriza.* 2009;5:1-7.
5. Pagliani L, Campi L, Cavallini GM. Orbital actinomycosis associated with painful ophthalmoplegia. *Actinomycosis of the orbit. Ophthalmologica.* 2006;220:201-5.
6. Chotmongkol V, Pathipanawatra T, Tiamkao S. Unusual manifestation in a case of nocardial meningitis. *J Med Assoc Thai.* 1993;76:638-40.
7. Kline LB, Hoyt WF. The Tolosa-Hunt syndrome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 2001;71:577-82.

8. Díez de los Ríos González A, Gómez Rebollo C, Aguilar Cuevas R. Caso 46: Síndrome de Tolosa-Hunt. Radiologia. 2013;55:181-3.
9. Arias-Miranda IM, Muño-Mateo F, Viejo de la Guerra G, García-Alcalde ML. Nocardiosis. Enferm Infecc Microbiol Clin. 2005;23:637-8.
10. Alonso Martínez JL, Tiberio Lopez G, Samperiz Legarre AL, Escobar Castellón F. Nocardiosis pulmonar: es la *Nocardia* un saprófito?. Arch Broconeumol.1988,24:91.
11. Betriu C. Infecciones por Nocardia. Enferm Infecc Microbiol Clin.1997;15:154-60.
12. Palmer DL, Harvey RL, Wheeler JK. Diagnostic and therapeutic considerations in *Nocardia asteroides* infection. Medicine. 1974;53:391-401.
13. Jain S, Duggal S, Das Chugh T, Khan ZU, Chandy R, Kaur. Nocardial infections: An under-diagnosed malady of immunocompromised hosts. J Immunol Tech Infect Dis. 2013 2:4
14. Borges AA, Krasnow SH, Wadleigh RG, Cohen MH. Nocardiosis after corticosteroid therapy for malignant thymoma. Cancer. 1993;71:1746-50.
15. Yaşar Z, Acat M, Onaran H, Ozgöl MA, Fener N, Talay F, et al. An unusual case of pulmonary nocardiosis in immunocompetent patient. Case Rep Pulmonol. 2014;2014:963482.
16. Singh I, West FM, Sanders A, Hartman B, Zappetti D. Pulmonary nocardiosis in the immunocompetent host: case series. Case Rep Pulmonol. 2015;2015:314831.

Com citar l'article: Jordana Ferrando P, Castro Alvarado EC, Martínez Arias A.A, Ruiz Martín MC, Degouveia Franco A, Romero González B. Síndrome de Tolosa-Hunt i Nocardiosi pulmonar en un pacient immunocompetent. But At Prim Cat 2019;37:38.