

## Vasculitis cerebral asociada a colitis ulcerosa

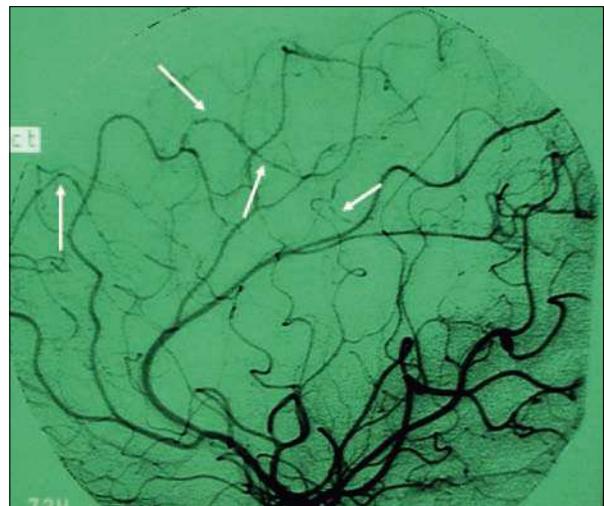
*Sr. Editor:*

Entre las manifestaciones extraintestinales que pueden acompañar a la colitis ulcerosa (CU), los accidentes cerebrovasculares (ACV) son poco habituales. Estados de hipercoagulabilidad de etiología multifactorial y asociaciones con cuadros de vasculitis podrían comprometer la circulación cerebral. Presentamos un caso de CU complicada con vasculitis cerebral por ser una asociación extremadamente inusual en pediatría.

Se trata de una paciente de 14 años con deposiciones mucosanguinolentas de 15 días de evolución y pérdida de 8 kg en el último mes. Analíticamente presenta anemia microcítica, hipoproteïnemia, hipalbuminemia, trombocitosis y marcadores inflamatorios elevados. Los estudios microbiológicos en heces son negativos. A las 24 h del ingreso, coincidiendo con pico febril, presenta disminución brusca de fuerza en hemisfero derecho, ataxia y afasia. La TC cerebral muestra lesión hipodensa yuxtacortical en convexidad parietal izquierda sugestiva de lesión isquémica o absceso cerebral, por lo que, ante la duda diagnóstica, se instaura corticoterapia anti edema cerebral y antibioterapia de amplio espectro. La rectoscopia muestra hallazgos sugestivos de proctitis ulcerosa con biopsias compatibles. Tras iniciar el tratamiento anteriormente descrito desaparece la fiebre y mejora la clínica neurológica. Paralelamente presenta mejoría progresiva de la sintomatología digestiva. Para descartar trombosis del seno venoso, se realiza estudio de hipercoagulabilidad (factores V, VII, VIII y X de coagulación, antitrombina III, mutaciones de protrombina, proteínas C y S, homocisteína, anticoagulante lúpico, funcionalismo plaquetario, y anticuerpos anticardiolipina) siendo normal. Dada la mejoría, es dada de alta con corticoides en descenso y mesalazina. Una semana después reingresa por empeoramiento de su clínica digestiva. La colonoscopia realizada es compatible con pancolitis ulcerosa. Al no responder a corticoterapia intravenosa se añade ciclosporina A, lográndose así controlar la situación. La angiografía cerebral realizada muestra disminución de la imagen patológica previa. Dos meses tras el alta y en tratamiento de mantenimiento con azatioprina, presenta crisis convulsiva tónico-clónica generalizada. Una nueva TC cerebral muestra lesiones residuales parietales y nuevas lesiones bilaterales afectando convexidades parietales, sugestivas de infartos. Se solicita arteriografía cerebral que muestra vasculitis de ramas distales de arterias cerebrales anterior y media (fig. 1). Se instaura tratamiento con pulsos mensuales de ciclofosfamida y esteroides orales en dosis decrecientes, asociados a azatioprina, tratamiento anticonvulsivante y profilaxis con heparina y AAS, presentando buena evolución neurológica. Tres meses después reinicia clínica digestiva que no responde a corticoterapia intravenosa, decidiéndose colectomía total e ileostomía. Presenta evolución quirúrgica satisfactoria, lo que permite la supresión progresiva de su medicación. Una nueva arteriografía 7 meses tras la intervención, muestra desaparición de las imágenes vasculíticas. Actualmente realiza profilaxis con AAS mientras que sangrados esporádicos por el

muñón rectal, en espera de la creación del reservorio, se han controlado con mesalazina tópica.

Los ACV asociados a enfermedad inflamatoria intestinal (EII) pediátrica son extremadamente raros, existiendo pocos casos comunicados<sup>1-3</sup>. Se han descrito episodios aislados de infartos de senos venosos y otros fenómenos isquémicos corticales y subcorticales. Se postulan diferentes factores que actuarían conjuntamente, como trombogénesis facilitada por encamamiento, deshidratación y estasis venoso, y situaciones de hipercoagulabilidad tanto congénitas como adquiridas<sup>4</sup>. Se han descrito aumentos en los niveles de los factores V y VII de la coagulación y del fibrinógeno, trombocitosis, disminución de la vida media plaquetaria y de su agregación, déficit adquirido de antitrombina III y niveles disminuidos de proteínas C y S. Por otro lado, la EII puede coexistir con diferentes vasculitis. Existen comunicadas asociaciones de EII con arteritis de Takayasu<sup>5</sup>, Churg-Strauss<sup>6</sup>, granulomatosis de Wegener<sup>7</sup>, vasculitis leucocitoclásica<sup>8</sup> y panarteritis nodosa cutánea<sup>9</sup>. Se desconocen los mecanismos patogénicos de estas asociaciones. En algunos casos se postula una base genética común, como es el caso de la CU asociada a Takayasu, con alta frecuencia de HLA específicos (HLA B52, DR2). En otras situaciones, como vasculitis necrosantes de vasos pequeños, podría estar implicado el depósito vascular de inmunocomplejos originados por la exposición de antígenos luminales (alimentarios, bacterianos, fecales) al tejido linfóide submucoso del intestino. Frente a fenómenos vasculíticos en otras localizaciones (cutáneas, pulmonares, peneanas, polineuropatías, iritis o



**Figura 1.** Arteriografía cerebral de la paciente en la que se observan tortuosidades (flechas) sugestivas de vasculitis en las ramas distales de las arterias cerebrales anterior y media.

poliserositis), aquellos que afectan a la circulación cerebral han sido raramente comunicados. En uno de los pocos casos descritos de pacientes pediátricos con EII y vasculitis cerebral<sup>10</sup>, se describen los hallazgos de la biopsia cerebral en un varón con CU y convulsiones, que coincidían con los observados en biopsias cutáneas y musculares. En nuestro caso, la vasculitis cerebral no se ha acompañado de fenómenos inflamatorios vasculares en otras localizaciones. El control de su enfermedad de base ha contribuido al control de las lesiones vasculares y a la desaparición de su sintomatología.

**J. Martín de Carpi<sup>a</sup>, J.M.<sup>a</sup> Ribó Cruz<sup>b</sup>,  
J. Antón López<sup>c</sup> y V. Varea Calderón<sup>a</sup>**

<sup>a</sup>Sección de Gastroenterología, Hepatología y Nutrición  
Pediátrica, <sup>b</sup>Servicio de Cirugía Pediátrica  
y <sup>c</sup>Unidad de Reumatología Pediátrica. Hospital Sant  
Joan de Déu. Universidad de Barcelona. España.

**Correspondencia:** Dr. J. Martín de Carpi.  
Sección de Gastroenterología,  
Hepatología y Nutrición Pediátrica. Hospital Sant Joan de Déu.  
P<sup>o</sup> Sant Joan de Déu, 2. 08950 Esplugues de Llobregat.  
Barcelona. España.  
Correo electrónico: javiermartin@hsjdbcn.org

## BIBLIOGRAFÍA

1. Calderone A, Wong J, Becker L. Multiple cerebral venous thrombosis in a child with ulcerative colitis. *Clin Pediatr*. 1993;32:169-71.
2. Markowitz R, Ment L, Gryboski J. Cerebral thromboembolic disease in pediatric and adult inflammatory bowel disease: Case report and review of the literature. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 1989;8:413-20.
3. Keene DL, Matzinger MA, Jacob PJ, Humpreys P. Cerebral vascular events associated with ulcerative colitis in children. *Pediatr Neurol*. 2001;24:238-43.
4. Baños R, Salama H, Martínez J, Morán S, Vargas A, Mercader J. Vascular complications associated with inflammatory bowel disease. *Ann Med Interna*. 2003;20:81-4.
5. Ohta Y, Ohya Y, Fujii K, Tsuchihashi T, Sato K, Abe I, et al. Inflammatory diseases associated with Takayasu's arteritis. *Angiology*. 2003;54:339-44.
6. Prekates AA, Orfanos SE, Routsis CJ, Pantelidaki A, Rosussos CS. Churo-Strauss syndrome occurring 30 years after the onset of ulcerative colitis. *Respir Care*. 2002;47:167-70.
7. Yano S, Kobavashi K, Kato K, Nishimura K. A limited form of Wegener's granulomatosis with bronchiolitis obliterans organizing pneumonitis-like variant in an ulcerative colitis patient. *Intern Med*. 2002;41:1013-5.
8. Iannone F, Scioscia C, Musio A, Piscitelli D, Lapadula G. Leucocytoclastic vasculitis as onset symptom of ulcerative colitis. *Ann Rheum Dis*. 2003;62:785-6.
9. Matsumara Y, Mizuno K, Ohta K, Okamoto H, Imamura S. A case of cutaneous polyarteritis nodosa associated with ulcerative colitis. *Br J Dermatol*. 2000;142:561-2.
10. Nelson J, Barron MM, Riggs JE, Gutmann L, Schchet SS. Cerebral vasculitis and ulcerative colitis. *Neurology*. 1986;36: 719-21.