



CARTAS CIENTÍFICAS

Osteomielitis crónica multifocal recurrente: claves para el diagnóstico



Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: Keys to diagnosis

Sra. Editora:

Se presenta una cohorte de 6 casos de osteomielitis multifocal recurrente crónica (OMCR) en niños y adolescentes, cuyas características clínicas y demográficas se resumen en la [tabla 1](#), e imágenes radiológicas en la [figura 1](#). Los pacientes presentaron dolor insidioso óseo o articular con hinchazón, calor y sensibilidad focales en el lugar afectado e impotencia funcional.

Una de las pacientes presentó piqueteado ungueal por psoriasis, cuyo diagnóstico precedió al de OMCR. Otro paciente presentó fiebre de hasta 39 °C. El resto no presentó clínica de síndrome constitucional, con una temperatura media al diagnóstico de 37,1 °C.

Cuatro pacientes tenían afectación multifocal, y 2 unifocal. Cuatro tuvieron recaídas en la localización original y uno en una localización diferente ([fig. 1A y B](#)), mientras que una no tuvo ninguna recaída.

En todos los casos, la analítica al diagnóstico fue normal, con la excepción de una elevación leve de la velocidad de sedimentación globular (VSG) y de la proteína C reactiva (PCR), con valores medios de 72 mm/h y 21 mg/L, respectivamente.

Las radiografías iniciales también fueron normales en todos los casos excepto en uno, en el que se detectó un patrón radiográfico agresivo en la metáfisis tibial distal ([fig. 1F-K](#)).

En todos los pacientes se realizó biopsia ósea guiada por TAC y resonancia magnética (RM) de las zonas afectadas. Los resultados descartaron la enfermedad infecciosa o tumoral en todos los casos, y evidenciaron cambios inflamatorios leves en la médula ósea. En 4 pacientes también se realizó una resonancia magnética de cuerpo entero (RMCE) ([fig. 1C-E](#)), que mostró afectación vertebral en todos ellos y colapso vertebral en tres.

Tres pacientes fueron diagnosticados inicialmente de osteomielitis sin agente microbiano conocido, y recibieron antibioterapia empírica hasta que se hizo el diagnóstico de OMCR. En 3 pacientes, el tratamiento con fármacos antiinflamatorios no esteroideos (AINE) consiguió la remisión de los síntomas, mientras que otros 3 requirieron tratamiento

de segunda línea, dos con pamidronato y uno con etanercept.

La OMCR es una enfermedad autoinflamatoria que afecta el esqueleto de niños y adolescentes¹. Las patologías coexistentes, como la psoriasis, la pustulosis palmoplantar, la enfermedad inflamatoria intestinal o la artritis inflamatoria, pueden estar asociadas o preceder al diagnóstico de OMCR². En la presente serie, un paciente presentó piqueteado ungueal. Su clínica se caracteriza por dolor insidioso en huesos o articulaciones en al menos una región, con hinchazón, calor y sensibilidad focales, pudiendo causar impotencia funcional. Al inicio, las anomalías óseas pueden limitarse a un solo foco o puede haber múltiples focos. Aunque nuestra serie no incluyó ningún paciente con afectación clavicular, la mayoría de los estudios publicados coinciden en que la osteomielitis de la clavícula es sugestiva de OMCR³.

Los síntomas pueden recurrir o remitir, y menos del 5% de los pacientes afectados presentan clínica de síndrome constitucional, como pérdida de peso o fiebre². En concordancia con la literatura previa, al diagnóstico de OMCR se observaron valores analíticos normales o elevación leve de la VSG y la PCR².

No hay criterios aceptados universalmente para el diagnóstico de la OMCR, aunque sí se han propuesto algunos (criterios de Bristol y Jansson)^{4,5}, y el diagnóstico de OMCR se basa en la exclusión de otras alternativas, especialmente las neoplasias malignas y las infecciones¹.

La radiografía simple es frecuentemente la primera modalidad de imagen empleada en el diagnóstico en las etapas iniciales de la OMCR, pero generalmente no detecta características patológicas específicas. De detectarse, suelen ser lesiones líticas metafisarias focales², como fue el caso en un solo paciente ([fig. 1](#)). La RM es particularmente sensible, incluso en estadios tempranos, y frecuentemente detecta la presencia de edema óseo asintomático y alteraciones en los tejidos blandos².

Cuando la presentación clínica de la osteomielitis es multifocal, unifocal con afectación de la clavícula o recurrente, se debe sospechar la OMCR, y la RMCE es el patrón oro para el diagnóstico. La RMCE puede detectar la afección multifocal y sirve para evaluar tanto la actividad de la enfermedad como posibles complicaciones esqueléticas, como fracturas vertebrales o deformidades óseas por cierre precoz de la fisis⁴. En nuestra serie, la mitad de los pacientes sufrieron colapsos vertebrales durante el curso de la enfermedad. Esto pone de relieve la importancia de un diagnóstico, tratamiento y seguimiento correctos en estos pacientes. Por último, múltiples estudios indican que actualmente se realiza una biopsia ósea en entre el 70% y el 80% de los pacientes², particularmente en casos de afección unifocal y

Tabla 1 Características de la cohorte

Caso	Edad/ sexo	VSG (mm/h)	PCR ^a (mg/L)	Temper- atura (°C)	Manifesta- ciones cutáneas	Presentación clínica	Número de episodios	Radiogra- fía inicial	Tratam- iento	Biopsia	Colapso vertebral
1	11 M	24	3	35,9	Piqueteado ungueal	Multifocal	1	Normal	AINE	Realizada	Sí
2	14 V	79	20	39	No	Multifocal	2	Normal	AINE + pamidronato	Realizada	Sí
3	15 M	100	40	37,5	No	Multifocal	4	Normal	AINE	Realizada	No
4	14 V	80	3	36,7	No	Multifocal	3	Lesión osteolí- tica	AINE + etanercept	Realizada	Sí
5	9 M	115	54	37	No	Unifocal	2	Normal	AINE + pamidronato	Realizada	No
6	2 V	34	4	36	No	Unifocal	2	Normal	AINE	Realizada	No

AINE: antiinflamatorio no esteroideo; M: mujer; PCR: proteína C reactiva; V: varón; VSG: velocidad de sedimentación globular.

^a Valor máximo de PCR durante el episodio.

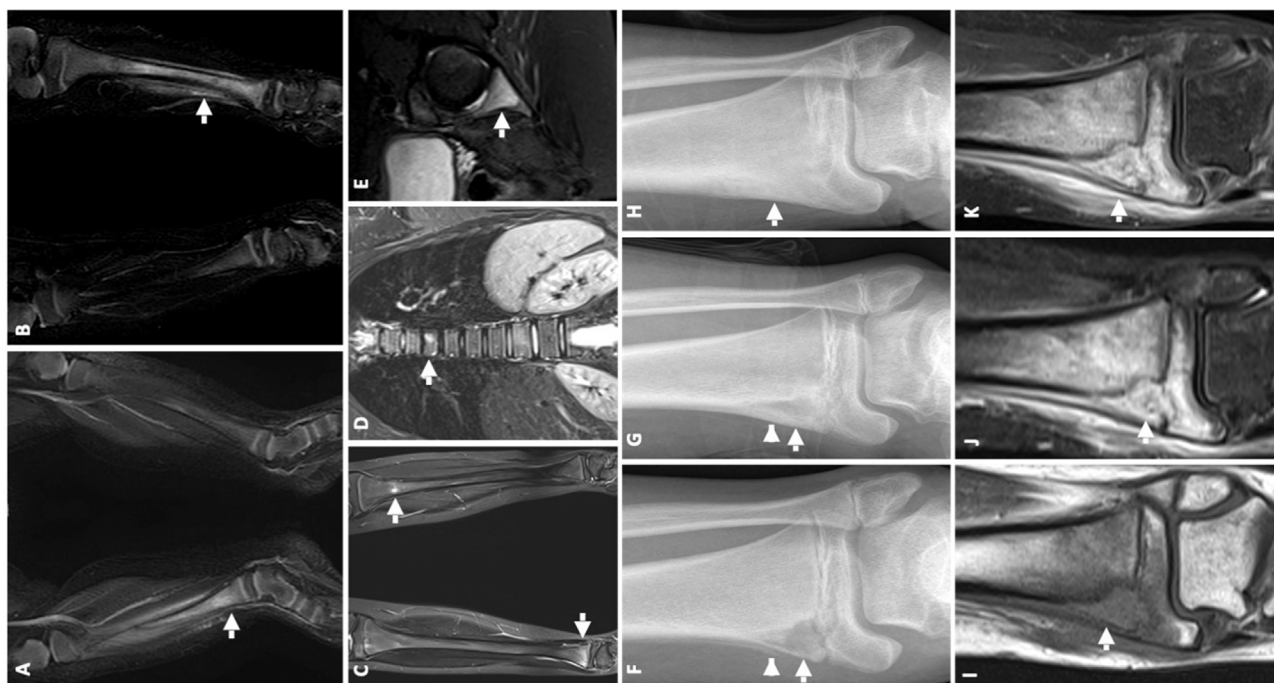


Figura 1 (A y B) Niño de 2 años que presentó dolor y signos de inflamación local en la extremidad inferior derecha con elevación leve de la VSG (34 mm/h) y la PCR (4 mg/L). (A) La RM inicial reveló edema metafisario y diafisario en la tibia derecha (flecha). No se aisló ningún patógeno y la enfermedad se clasificó como osteomielitis bacteriana sin etiología microbiológica identificada. (B) A los 5 meses, tuvo un episodio similar en la extremidad inferior izquierda, y la RM reveló edema metafisario y diafisario en la tibia izquierda (flecha), llevando al diagnóstico de OMCR. (C-E) Niña de 11 años que presentó dolor y signos de inflamación local en la extremidad inferior derecha con elevación leve de la VSG (24 mm/h) y la PCR (3 mg/L). Antecedente de dolor de espalda de un año de duración. La RMCE en secuencia STIR (*short tau inversion recovery*) reveló múltiples focos de edema óseo: en la metafisis tibial (flechas en C), en el cuerpo vertebral de T7 (flecha en D), y la pared posterior del acetábulo (flecha en E). (F-K) Adolescente varón de 14 años que presentó dolor y signos de inflamación local en la extremidad inferior izquierda y elevación leve de la VSG (80 mm/h) y la PCR (3 mg/L). (F) La radiografía anteroposterior inicial mostró una lesión lítica excéntrica adyacente a la fisas al nivel de la metafisis de la tibia distal (flecha), con reacción perióstica discontinua (cabeza de flecha). (G) Cinco meses después, el tamaño de la lesión había disminuido (flecha) y la reacción perióstica era continua (cabeza de flecha). (H) A los 2 años, la lesión se había resuelto, con esclerosis ósea residual mínima (flecha). (I) RM al diagnóstico con visualización de una lesión transfisaria: hipointensa en secuencias T1 (flecha) e (J) hiperintensa en secuencias T2 (flecha). (K) Realce intenso de la lesión ósea y los tejidos blandos circundantes (flecha).

con localización atípica, de inicio precoz (edad inferior a 2 años) o con respuesta atípica al tratamiento⁵. Sin embargo, en nuestra serie de casos se realizó biopsia ósea en todos los pacientes con el fin de descartar diagnósticos alternativos. En niños que presentan dolor unifocal, el diagnóstico diferencial es bastante amplio, y la OMCR debe considerarse cuando los resultados de los hemocultivos y la biopsia descartan la infección y la neoplasia.

Bibliografía

1. Wobma H, Jaramillo D, Imundo L. When local bone pain is just the tip of the iceberg—a case report of three patients with chronic multifocal recurrent osteomyelitis and some red flags to help make the diagnosis. *Front Pediatr*. 2019;7:407.
2. Menashe SJ, Aboughalia H, Zhao Y, Ngo AV, Otjen JP, Thapa MM, et al. The many faces of pediatric chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO): A practical location- and case-based approach to differentiate CRMO from its mimics. *J Magn Reson Imaging*. 2021;54:391–400.
3. Koryllou A, Mejri M, Theodoropoulou K, Hofer M, Carlomagno R. Chronic nonbacterial osteomyelitis in children. *Children (Basel)*. 2021;8:551.

4. Roderick MR, Shah R, Rogers V, Finn A, Ramanan AV. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO) - advancing the diagnosis. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2016;14:47.
5. Jansson A, Renner ED, Ramser J, Mayer A, Haban M, Meindl A, et al. Classification of non-bacterial osteitis: retrospective study of clinical, immunological and genetic aspects in 89 patients. *Rheumatology (Oxford)*. 2007;46:154–60.

Raquel Lisbona^{a,*}, Melania Martínez-Morillo^b,
María Méndez^c, Damian García-Perdomo^a
y Ricard Pérez-Andrés^a

^a Sección de Radiología Musculoesquelética, Hospital Germans Trias i Pujol, Badalona, España

^b Servicio de Reumatología, Hospital Germans Trias i Pujol, Badalona, España

^c Servicio de Pediatría, Hospital Germans Trias i Pujol, Badalona, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: rlisbona.germanstrias@gencat.cat
(R. Lisbona).

<https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2023.03.015>
1695-4033/

© 2023 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Toxicidad sistémica grave tras la aplicación de lidocaína tópica



Serious systemic toxicity after application of topical lidocaine

Sra. Editora,

Describimos el caso de un varón de 5 años sin antecedentes de interés, remitido al Servicio de Urgencias (SU) por crisis convulsivas. La madre refirió la aplicación de un tubo completo de 30 g de lidocaína 40 mg/g por el tronco y extremidades, con posterior vendaje oclusivo, tal como había sido indicado previo curetaje de *moluscum contagiosum*. Una hora después, presentó un episodio de desconexión con movimientos tónico-clónicos (1 min) mientras se encontraba en el centro donde debían realizarle el procedimiento. Se retiró el vendaje y se realizó una limpieza rápida de la zona. La piel presentaba lesiones cutáneas compatibles con eccema, presentes previamente. Durante el traslado al SU, el paciente presentó una segunda crisis, llegando en periodo poscrítico. A los pocos minutos inició un nuevo episodio de convulsión por lo que se administró midazolam intravenoso, presentando depresión respiratoria que requirió ventilación manual. El paciente fue trasladado a la Unidad de Cuidados Intensivos con respiración espontánea, sin recuperación del nivel de conciencia y con tendencia a la bradicardia. Ante la sospecha de intoxicación grave por lidocaína, se administró emulsión lipídica (ELI) al 20% (bolo inicial 1,5 mL/kg en 3 min y posteriormente dosis de 0,25 mg/kg/min durante 30 min). Asimismo, se realizó descontaminación cutánea con

agua y jabón abundantes. Se observó una mejoría progresiva, con traslado a planta a las 24 h y alta hospitalaria al tercer día. La determinación seriada de la concentración sérica de lidocaína, mediante cromatografía líquida/tándem masas, mostró un aumento progresivo hasta 3,2 µg/mL a las 5 h postaplicación, previo a la administración de ELI (fig. 1).

Simultáneamente, fueron atendidos los hermanos del paciente a los que también se aplicó lidocaína 40 mg/g: un niño de 7 años (recibió 2/3 de tubo, aproximadamente 800 mg de lidocaína), y otro de 3 años (1/3 del tubo, unos 400 mg). El primero presentó tendencia a la bradicardia e ingresó con monitorización durante 24 h. El segundo permaneció en observación, asintomático, durante 8 h.

La lidocaína es un anestésico local tipo amida. En pediatría, se utiliza con frecuencia como anestésico tópico y debe tenerse en cuenta que la aplicación de dosis altas o repetidas puede producir toxicidad sistémica. Esta se debe a la inhibición reversible de la generación y transmisión del impulso nervioso, teniendo efecto tanto estimulante como depresor a nivel del sistema nervioso central, y depresor sobre el cardiovascular¹. Entre las manifestaciones neurológicas destacan la confusión, alucinaciones, convulsiones, coma con apnea y, entre las cardiovasculares, la hipertensión y taquicardia transitorias seguidas de arritmias (bradicardia sinusal, arritmias del nodo AV y ventriculares, asistolia). Pueden aparecer náuseas y vómitos, así como metahemoglobinemia^{1,2}. Esta última, aunque posible, se relaciona más con intoxicaciones con otros anestésicos locales o combinaciones de estos, como la crema de lidocaína y prilocaína^{1,2}.

La tabla 1 muestra los factores que contribuyen a la aparición de toxicidad, varios de ellos presentes en nuestro