

Pneumorraquis, espondilitis y meningitis secundarios a cistitis enfisematosa

SUSANA MICHALLAND, DANIEL ERLIJ, OSCAR NEIRA

Pneumorrhachis, spondylitis and meningitis secondary to emphysematous cystitis. Report of one case

We report a 57-year-old woman who presented with low back pain, fever and impairment of consciousness. The patient was admitted to the intensive care unit in Glasgow 8, with neck stiffness, peritoneal irritation, leukocytosis, hyperglycemia requiring insulin and a urine test suspecting an infection. Brain CT was unremarkable, while CT of the abdomen and pelvis evidenced emphysematous cystitis, retroperitoneum and pneumorrhachis. Blood, urine and cerebrospinal fluid cultures were positive to Escherichia coli. She was treated with ceftriaxone, ciprofloxacin and amikacin during one month followed by ciprofloxacin until completing 100 days. The air in the spinal canal and bladder decreased. However she suffered several infectious complications such as multiple paravertebral, epidural and psoas abscesses, L5-S1 spondylitis and a L3 fracture. As an inflammatory complication she developed a bulbar infarction and tetraparesis. She had a good clinical response with medical treatment, partial improvement of the paresis and reduction of epidural abscesses.

(Rev Med Chile 2014; 142: 1061-1064)

Key words: Bacteremia; Cystitis; Pneumoperitoneum; Pneumorrhachis.

El pneumorraquis se define como la presencia de aire intraespinal. Es una entidad infrecuente pero de diagnóstico creciente con el mayor acceso a estudio de imágenes. Habitualmente es secundario a trauma, a procedimientos médicos o espontáneo y muy pocas veces descrito como consecuencia de infecciones. Generalmente se presenta como un hallazgo asintomático, pero puede también ser sintomático por sí mismo o por la patología subyacente¹.

La cistitis enfisematosa es una entidad infecciosa caracterizada por la presencia de gas en el lumen y en la pared de la vejiga. Se asocia a una alta morbi-mortalidad, presentándose preferentemente en grupos de riesgo como pacientes diabéticos y mujeres de edad avanzada, con comorbilidad de las vías urinarias o inmunosupresión. Los gérme-

nes más frecuentemente involucrados (80%) son *Escherichia coli* y *Klebsiella pneumoniae*². El mecanismo a través del cual se produce el gas no está bien dilucidado. En pacientes diabéticos, se postula el sobrecrecimiento bacteriano en la vejiga, con producción de CO₂ por fermentación anaeróbica de la glucosa, asociado a niveles de glucosa altos en sangre y orina^{3,4}. Otro mecanismo postulado, principalmente en pacientes no diabéticos, es por la vía de fermentación de la lactosa y de aminoácidos en presencia de necrosis tisular⁴⁻⁶. No ha sido descrita en la literatura la asociación entre cistitis enfisematosa y pneumorraquis.

Se comunica una mujer que debutó con diabetes mellitus tipo 2 (DM tipo 2) en el contexto de una sepsis severa causada por cistitis enfisematosa complicada con bacteriemia, espondilitis, absce-

Sección de Reumatología,
Hospital del Salvador, Universidad
de Chile. Santiago, Chile.

Los autores declararon no tener
conflictos de intereses.

Recibido el 1 de marzo de 2014.
Aceptado el 22 de agosto de
2014.

Correspondencia:
Dra. Susana Michalland Herrera
Hospital del Salvador, Servicio de
Medicina, Sección Reumatología.
Avenida Salvador 364,
Providencia. Santiago, Chile.
Fono: 2-25753590
smichalland@vtr.net

sos epidurales, pneumorraquis y meningitis, con evolución favorable a la terapia.

Caso clínico

Mujer de 57 años con antecedentes de úlcera duodenal y tabaquismo de dos cigarrillos por día, sin controles de salud. Consultó en el Servicio de Urgencias por lumbalgia de una semana de evolución, agregándose fiebre y progresivo compromiso cuali-cuantitativo de conciencia. Se constató confusa y agitada, en Glasgow 14, taquicárdica, normotensa y afebril, con dolor difuso a la palpación abdominal. Los exámenes de laboratorio mostraron leucocitosis de 21.900 por mm^3 , 93,8% de neutrófilos, plaquetas 31.600 por mm^3 , PCR 315 mg/l ($\text{VN} < 5$), glicemia 327 mg/dl , BUN 38 mg/dl , creatinina 0,92 mg/dl , HCO_3^- 16,5 mEq/l , orina completa: leucocitos 20-30 por campo, eritrocitos

10-20 por campo, bacterias (+++), nitritos (+), proteínas (-). Protrombina 45%, TTPK 29 seg. Evolucionó con mayor compromiso de conciencia, Glasgow 8, rigidez de nuca y signo de Blumberg positivo, por lo que se trasladó a la Unidad de Cuidados Intensivos (UCI). Fue conectada a ventilación mecánica invasiva. Se realizó tomografía axial computada (TAC) de cerebro, tórax, abdomen y pelvis. Se inició terapia antibiótica empírica por sepsis de foco en estudio, con imipenem y vancomicina. Se objetivó el debut de DM tipo 2, siendo tratada con insulina cristalina.

La TAC cerebral no mostró alteraciones. La TAC de abdomen y pelvis (Figura) reveló imágenes de cistitis enfisematosa, pneumorretroperitoneo y pneumorraquis. Fue evaluada por reumatólogos por la sospecha de espondilodiscitis. Se realizó una punción lumbar, en un nivel alejado de la espondilodiscitis, la que dio salida a líquido

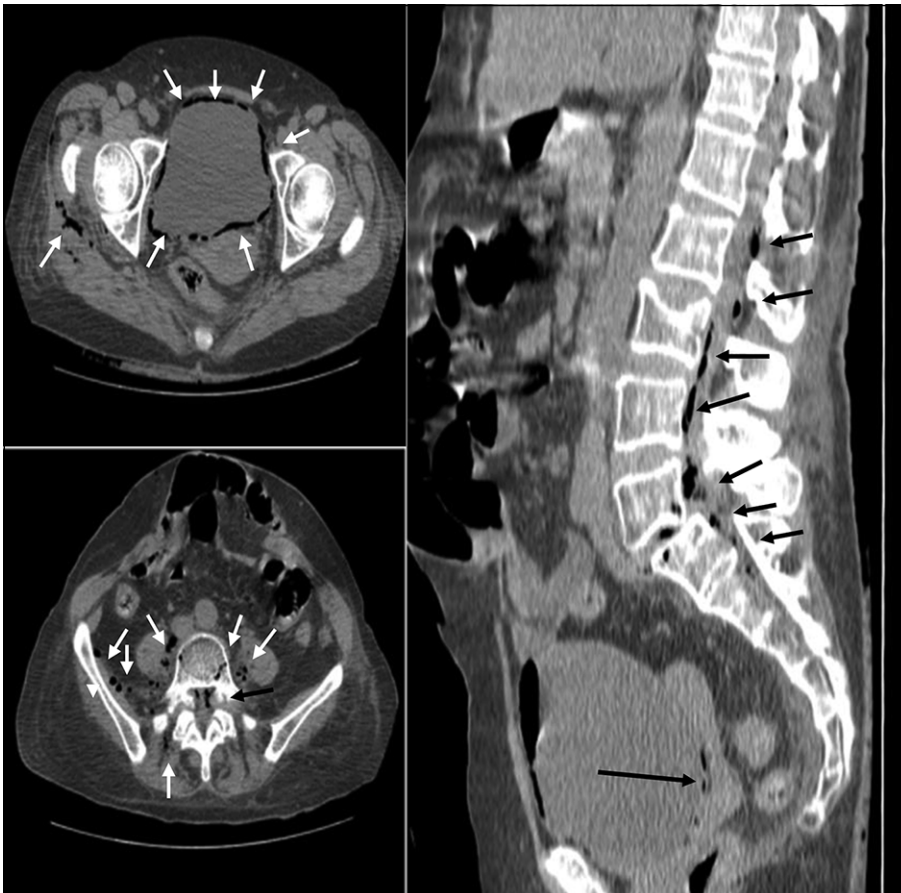


Figura. TAC de abdomen y pelvis donde se evidencia la presencia de aire en la pared vesical, retroperitoneo y pneumorraquis en varios segmentos lumbares y sacro.

cefalorraquídeo (LCR) purulento de mal olor. En hemocultivos, urocultivo y cultivo de LCR se desarrolló *Escherichia coli* susceptible a múltiples antibióticos. Se ajustó la terapia antibiótica a ceftriaxona, ciprofloxacina y amikacina. El equipo de Urología definió manejo médico de la cistitis enfisematosa. En la TAC de control, cuatro días más tarde, se observó menos aire en el conducto raquídeo y la vejiga, colecciones en espacio discal L5-S1, paravertebral, psoas y derrame pleural leve. La evaluación neurológica evidenció una tetraplejía, hiperreflexia y Babinski presente. Se sospechó un accidente cerebrovascular secundario a abscesos epidurales y se realizó resonancia nuclear magnética (RNM) cerebral, la que evidenció un probable infarto medular bulbar, absceso epidural cervical y lumbar, abscesos paravertebrales múltiples y del psoas derecho, colecciones en L2, espondilitis L5-S1 y fractura de L3. El caso fue discutido por el equipo de Neurocirugía, descartándose la posibilidad de una intervención por su alto riesgo quirúrgico. Se trató durante 7 días con dexametasona por el compromiso medular.

La paciente evolucionó con fiebre durante varias semanas, con hemocultivos negativos. Tras 16 días de ventilación mecánica invasiva fue extubada, trasladada a UCI y luego a sala. A sugerencia de infectólogos completó 28 días de tratamiento con ceftriaxona y se cambió a ciprofloxacina vía oral. Se mantuvo afebril y con parámetros inflamatorios bajos. Requirió drenaje por punción bajo TAC de la colección del psoas derecho, cuyo cultivo fue polimicrobiano. Presentó dolor neuropático de difícil manejo, requiriendo pregabalina, amitriptilina, opiáceos y paracetamol. Hubo una lenta mejoría de la tetraplejía, logrando fuerza M3 en extremidades inferiores y M4 en extremidades superiores al momento del alta. En la RNM de control se observó disminución de los abscesos epidurales, sin evidencia de compresión de plexos ni raíces.

Completó 100 días de antibioterapia, siendo dada de alta en condición estable. Se controla en otra ciudad, y a los 11 meses del alta se mantiene estable, afebril, en rehabilitación de su tetraparesia.

Discusión

El pneumorraquis es la presencia de aire intraespinal. Es muy infrecuente, pero se ha reportado un aumento del número de casos con

la extensión en los estudios de imágenes, siendo probablemente sub diagnosticado. Habitualmente se encuentra como hallazgo aislado en columna cervical, dorsal o lumbosacra, aunque puede estar en varios segmentos de la columna¹. Puede asociarse a pneumotórax, pneumomediastino, pneumorretroperitoneo, pneumoperitoneo o enfisema subcutáneo^{1,7,8}.

El pneumorraquis se clasifica en interno o intradural (espacio subdural o subaracnoideo) y en externo o extradural (intraespinal o epidural). Este último en general es inocuo^{1,8}. Típicamente el aire se deposita en la porción posterior del espacio epidural porque hay menor vasculatura que le otorgue resistencia⁸. Estos tipos de pneumorraquis tienen no sólo etiología y patogenia diferente, sino también diferencias clínicas y pronósticas. El epidural habitualmente es asintomático, salvo por la condición causal concomitante y de resolución espontánea, mientras que el subaracnoideo puede causar síntomas por compresión medular, hipertensión intraespinal o intracraneana, y puede requerir resolución quirúrgica⁸.

La etiología del pneumorraquis es diversa: con mayor frecuencia traumático, como en pneumotórax, pneumoencéfalo, fracturas, etc.; iatrogénico, como en procedimientos torácicos, barotrauma, endoscópicos, punciones lumbares por anestesia, cirugías traumatológicas, tratamientos oncológicos, maniobras de Valsalva, parto; más infrecuentes son las causas no traumáticas: pneumotórax espontáneo, pneumomediastino, asma, síndrome de vacío por degeneración de discos intervertebrales, el uso de *cannabis* o éxtasis, absceso epidural, otras condiciones respiratorias que aumentan la presión intratorácica, e incluso de aparición espontánea^{1,7-15}. Puede ser primario si la causa del aire intraespinal es una patología local, o secundario si el aire proviene de otra zona del cuerpo¹. Se debe diferenciar del aire intraespinal secundario a lesiones degenerativas (síndrome de vacío en discos intervertebrales), inflamatorias (secundario a enfermedad inflamatoria intestinal), neoplásicas (rotura de vísceras huecas por neoplasias o post-radiación), e infecciosas (gérmenes productores de gas en abscesos epidurales)¹.

El diagnóstico de elección del pneumorraquis es mediante la TAC, que permite visualizar con certeza el aire intrarraquídeo. La RNM es útil para evaluar su etiología y otras complicaciones^{1,7,8}.

Su manejo depende de la condición subya-

cente, debe ser individualizado y habitualmente multidisciplinario. Varía desde la observación a la cirugía en casos de fistulas tóraco-aracnoideas o el trauma pulmonar. En raras ocasiones se ha utilizado dexametasona y descompresión de espacio epidural con aspiración de aire, y altas concentraciones de O₂ para desplazar el nitrógeno. No está demostrada la utilidad del uso de antibióticos en el neumorraquis extradural o en intradural sin clínica de meningitis¹.

En nuestra revisión de la literatura no encontramos descripción de casos de neumorraquis asociado a cistitis enfisematosa. Sólo se han descrito dos casos de neumorraquis asociada a pielonefritis enfisematosa, con desenlace fatal^{15,19}. La importancia de este reporte radica en mostrar una condición extremadamente grave e infrecuente, una cistitis enfisematosa bacteriémica con complicaciones infecciosas vertebrales, meníngeas y retroperitoneales y, además, un neumorraquis secundario. La diseminación de la infección en una paciente susceptible por una DM tipo 2, pudo ocurrir por vía hematógena, por extensión a través del canal raquídeo, o ambas. El uso prolongado de antibióticos permitió una mejoría significativa de esta paciente, la que sin embargo, quedó con importantes secuelas neurológicas.

Referencias

- Oertel M, Korinth M, Reinges M, Krings T, Terbeck S, Gilsbach J. Pathogenesis, diagnosis and management of pneumorrhachis. *Eur Spine J* 2006; 15 (Suppl 5): S636-43.
- Amano M, Shimizu T. Emphysematous cystitis: a review of the literature. *Intern Med* 2014; 53: 79-82.
- Vega-Cabrera C, Costero-Fernández O, Rivas-Becerra B, Menéndez-González D, Selgas-Gutiérrez R. Emphysematous cystitis. *Nefrología* 2013; 33(1): 149-50.
- Thomas AA, Lane B, Thomas AZ, Remert E, Campbell S, Shoskes D. Emphysematous cystitis: a review of 135 cases. *BJU Int* 2007; 100: 17-20.
- Tagowski M, Kamusella P, Andresen R. A rare cause of abdominal pain: Emphysematous cystitis. *Fortschr Röntgenstr* 2013; 185: 1-2.
- Sánchez Pulgarín I, Kessler Saiz P, Odriozola Grijalva M. Cistitis enfisematosa. *An Med Interna* 2006; 23: 602-3.
- Gelalis ID, Karageorgos A, Arnaoutoglou C, Gartzonikas D, Politis A, Georgakopoulos N, et al. Traumatic pneumorrhachis: etiology, pathomechanism, diagnosis and treatment. *Spin J* 2011; 11 (2): 153-7.
- Martín-Serradilla JI, Guerrero-Peral AL, Franco-Hidalgo S, Laherrán E, Sobrino-Garrido G. Neumorraquis epidural. *Rev Neurol* 2007; 44 (4): 254-5.
- Pérez Frutos MD, Cerezo Arias MO, Córdoba López A, Granado Martínez D. Pneumorrhachis: a rare complication of an asthma episode. *Med Intensiva* 2011; 35 (2): 130-2.
- Kim C-H. Pneumorrhachis and paraspinous air with vacuum disc: case report and literature review. *J Korean Neurosurg Soc* 2007; 42: 490-1.
- Akay S, Bayram B. Traumatic pneumorrhachis: a rare entity of trauma. *Int J Emerg Med* 2008; 1: 53.
- De Oliveira GS, Charchafieh J, Walega D. Pneumorrhachis mimicking meningitis after a paramedian lumbar interlaminar injection. *Clin J Pain* 2011; 27(4): 355-6.
- Amit A, Toll EC, Siddique S, Nelson RJ. Pneumorrhachis and pneumocranium: an unusual complication of intra-abdominal sepsis. *Br J Neurosurg* 2011; 25 (1): 111-2.
- Chun BJ, Moon JM. Symptomatic epidural pneumorrhachis associated with an occult pneumomediastinum due to minor trauma. *Spine* 2009; 34 (26): E979-82.
- Rehman TA, Mammen T, Thaj J, Cherian RS. Is pneumorrhachis a poor prognostic sign in acute gangrenous abdominal emergencies? *Emerg Radiol* 2009; 16(2): 151-4.
- Holton LH, Migaly J, Rolandelli RH. Pneumorrhachis, subcutaneous emphysema, pneumomediastinum, pneumopericardium and pneumoretroperitoneum after proctocolectomy for ulcerative colitis: report of a case. *Dis Colon Rectum* 2002; 45 (4): 567-70.
- Kumaran SP, Gupta K, Singh SS. A rare association of spontaneous pneumorrhachis with spondylolisthesis and lumbosacral vacuum phenomenon: A case report with review of literature. *Neurol India* 2011; 59: 120-1.
- Al-Mufarrej F, Gharagozloo F, Tempesta B, Margolis M. Spontaneous cervicothoracolumbar pneumorrhachis, pneumomediastinum and pneumoperitoneum. *Clin Res J* 2009; 3(4): 239-43.
- Sailesh S, Randeva HS, Hillhouse EW, Patel V. Fatal emphysematous pyelonephritis with gas in the spinal extradural space in a patient with diabetes. *Diabet Med* 2001; 18 (1): 68-71.