

## Osteomielitis crónica multifocal recurrente: A propósito de un caso.

**Pedro Luis Vaca Fernández\***, **Yaiza Beatriz Molero Díez\*\***, **Gregorio de Jesús Labrador Hernández\*\*\***, **Marta Baruque Astruga<sup>1\*</sup>**

\* MIR. Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Complejo Asistencial de Zamora. Zamora (España).

\*\* MIR. Servicio de Anestesiología y Reanimación. Complejo Asistencial de Zamora. Zamora (España).

\*\*\* MIR. Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Hospital Clínico Universitario de Valladolid. Valladolid. (España).

<sup>1</sup>\*MIR. Cirugía Ortopédica y Traumatología. Hospital Río Carrión de Palencia. (España).

**Correspondencia:** Pedro Luis Vaca Fernández. plvaca@saludcastillayleon.es

### RESUMEN

**Introducción.** La osteomielitis crónica multifocal recurrente (OCMR) es una rara enfermedad inflamatoria autoinmune caracterizada por la aparición lenta y recurrente de lesiones óseas estériles. Afecta principalmente a niños y adolescentes, y su etiología y patogénesis son aún desconocidas. El diagnóstico supone un reto debido a la falta de existencia de pruebas específicas.

**Exposición del caso.** Se presenta el caso de un varón de 2 años que es derivado a consultas externas de Traumatología por cojera de extremidad inferior izquierda de 2 meses de evolución, con períodos de dolor fluctuante referidos en retropié que ceden en ocasiones con AINEs orales. Tras arrojar resultados normales en radiografía simple, analítica y hemocultivo, precisó de ingreso y alta sospecha clínica para ser diagnosticado de OCMR.

**Diagnóstico y Discusión.** El diagnóstico de OCMR, ante la ausencia de criterios diagnósticos y biomarcadores de la enfermedad, requiere exclusión de un amplio diagnóstico diferencial. La baja prevalencia (apenas 500 casos en el mundo) hacen que no existan estudios con la suficiente evidencia como para establecer protocolos de manejo de la enfermedad.

### PALABRAS CLAVE

Osteomielitis multifocal, recurrente, AINEs.

### CASO CLÍNICO

#### INTRODUCCIÓN

La OCMR es una enfermedad ósea autoinflamatoria caracterizada por la aparición de lesiones inflamatorias en metáfisis de huesos largos de las extremidades inferiores, clavículas y esqueleto axial. Los pacientes suelen presentar dolor óseo multifocal y un curso recurrente. Suele afectar con más frecuencia al sexo femenino y a menudo se asocia a otras patologías autoinflamatorias. El diagnóstico es de exclusión, y el objetivo del tratamiento es en manejo del dolor y mantener un crecimiento óseo normal.

A continuación, se presenta el caso de un varón de 2 años diagnosticado de OCMR. El objetivo es exponer un caso de esta patología y revisar la bibliografía existente.

#### EXPOSICIÓN DEL CASO

Varón de 2 años y 3 meses derivado a consultas externas de Traumatología por cojera de extremidad inferior izquierda de 2 meses de evolución, con períodos de dolor fluctuante referidos en retropié izquierdo que ceden en ocasiones con AINEs orales. Como antecedente personal presentó un embarazo de riesgo y cesárea urgente, y déficit de  $\alpha$ -1-

antitripsina. No antecedentes familiares de interés. A la exploración física el paciente estaba afebril, y presentaba rechazo al apoyo en la primera consulta, con deambulación en posición antiálgica en rotación externa en las sucesivas visitas. No se observaban signos de infección local en tobillo izquierdo, la palpación anterior del tobillo resultaba dolorosa, conservaba el vasculonervioso distal y los rangos de movilidad de extremidades inferiores eran completos.

Se solicitó en primer lugar una radiografía lateral de tobillo que resultó normal, y posteriormente ecografía de cadera y mensuración de miembros inferiores con idéntico resultado (Figuras 1 y 2). En la analítica destacó un aumento de reactantes de fase aguda, con una leucocitosis (12000), PCR de 11mg/ml y VSG de 18 mg/ml. Se tomaron hemocultivos que resultaron negativos.

Ante la incertidumbre diagnóstica y el cuadro clínico larvado se decidió ingresar al paciente. Inicialmente se pautó tratamiento intravenoso con cefotaxima 375 mg cada 6 horas y cloxacilina 375 mg cada 6 horas, asociando ibuprofeno vía oral 5 ml cada 8 horas. Se solicitaron una gammagrafía ósea (Figura 3) y una Resonancia Magnética (Figura 4), y se tomaron hemocultivos. La primera de ellas mostró captación en región sacroilíaca derecha y tercio distal de tibia izquierda. La resonancia reveló una lesión lítica en tibia distal izquierda de 1,7 x 2 cm, así como un edema óseo en región sacroilíaca derecha. Los hemocultivos volvieron a dar un resultado negativo.

Se procedió posteriormente a la toma de biopsia de tobillo izquierdo, obteniéndose células inflamatorias mixtas combinadas con resto de elementos de médula ósea.

Integrando todos los datos clínicos, analíticos, de imagen y anatomopatológicos, se llegó por exclusión al diagnóstico de Osteomielitis Crónica Multifocal Recurrente.

Tras la mejoría clínica, el paciente fue dado de alta con tratamiento domiciliario secuencial con indometacina. Tras un seguimiento de 2 años, sólo presenta episodios puntuales de dolor sin limitación funcional que ceden con AINEs vía oral.

## DIAGNÓSTICO Y DISCUSIÓN

La OMCR es una enfermedad ósea autoinflamatoria que afecta fundamentalmente a individuos en edad pediátrica, especialmente a mujeres entre 9 y 14 años, siendo poco frecuente en adultos [1]. Las lesiones suele ser multifocales, y, aunque pueden aparecer en cualquier hueso, lo más frecuente es que afecte a metáfisis y epífisis de huesos largos, generalmente fémur y tibia, aunque no es infrecuente su aparición

en zonas del esqueleto axial como escápula, pelvis, raquis e incluso, mandíbula [2].

La etiología de esta enfermedad es aún desconocida, aunque se cree que pueda existir un trastorno genético que condicione una alteración autoinmune: los glóbulos blancos, principalmente los monocitos, muestran una expresión alterada de las citocinas clave en estos pacientes, produciendo un aumento del nivel de citocinas proinflamatorias (IL-6, IL20 y TNF $\alpha$ ) y un descenso de las antiinflamatorias (IL-10, IL-19) [3].

La clínica es recurrente, predominando el dolor, asociado o no a eritema y calor local. En ocasiones asocian alteraciones cutáneas (pústulas, psoriasis...) y puede cursar con febrícula. En el laboratorio los reactantes de fase aguda suelen ser normales o moderadamente elevados [4].

En las pruebas de imagen, las radiografías se observan lesiones líticas de localización metafisaria, que en su evolución se vuelven esclerosas [5]. La resonancia magnética es más sensible, y muestra lesiones hiperintensas en T2 en relación al edema óseo, asociando o no periostitis y extensión de la inflamación a tejidos blandos perilesionales [6].

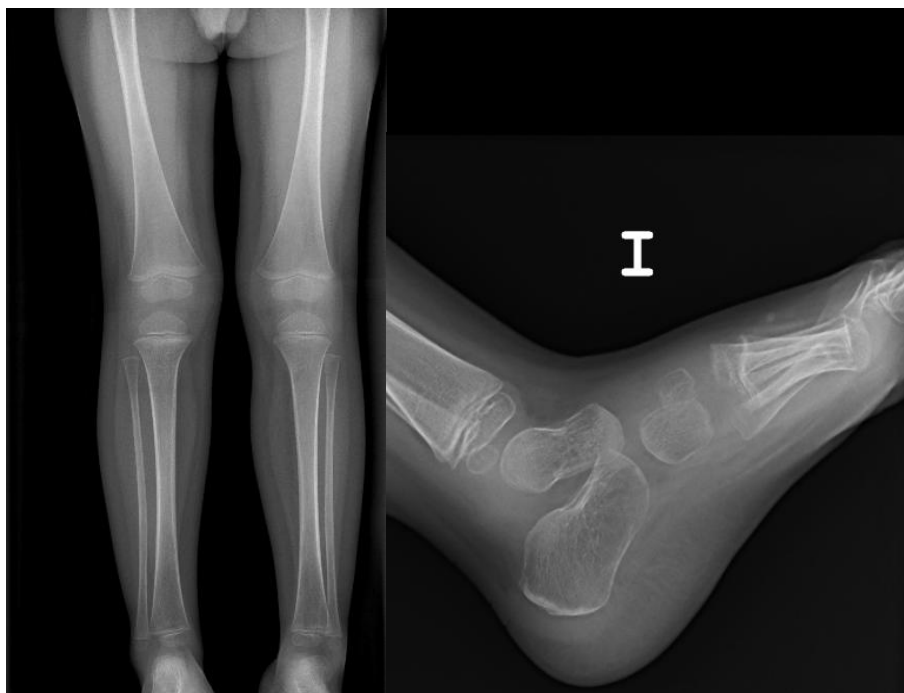
En la mayoría de los casos con la clínica, pruebas analíticas y de imagen típicas se puede alcanzar el diagnóstico sin necesidad de biopsia. Sin embargo, en el momento en que no se cumplan algunas de las condiciones anteriores se debe realizar la biopsia siempre para realizar un correcto diagnóstico diferencial. La biopsia en OMCR por lo general suelen ser estériles y la Anatomía Patológica suele mostrar cambios inflamatorios no específicos ni mucho menos patognomónicos de la enfermedad [1]. El diagnóstico diferencial hay que realizarlo principalmente con la histiocitosis de Langerhans, infecciones y tumores malignos como el osteosarcoma o el sarcoma de Ewing [7].

Por último, estos pacientes responden bien al tratamiento a largo plazo con AINES, especialmente a naproxeno e indometacina (de 12 a 18 meses). En casos resistentes, se emplean corticosteroides, bifosfonatos o inhibidores del TNF $\alpha$ . El pronóstico por lo general es bueno, disminuyendo el número de episodios y en ocasiones remitiendo por completo [4].

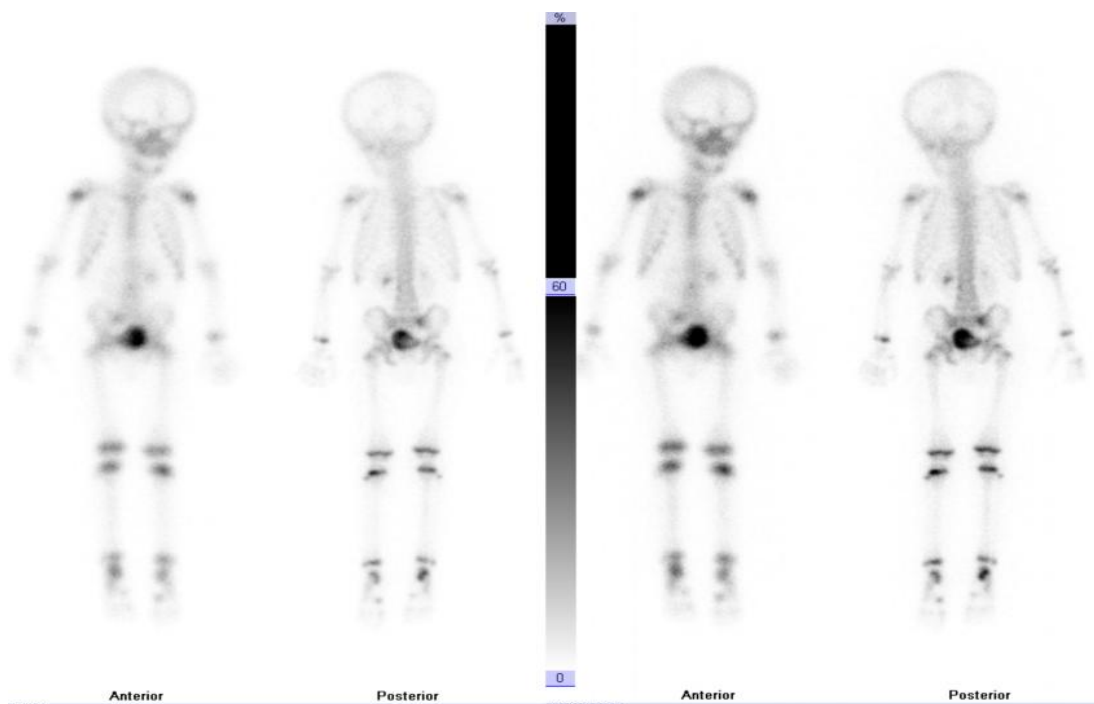
## BIBLIOGRAFÍA

1. Martin JC, Desoysa R, O'Sullivan MM, Silverstone E, Williams H. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: spinal involvement and radiological appearances. *Br J Rheumatol*. 1996 Oct;35(10):1019-21
2. Roderick MR, Shah R, Rogers V, Finn A, Ramanan AV. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO) - advancing the diagnosis. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2016 Aug 30;14(1):47.
3. Roig-Abraham N, Méndez-Hernández M, Martínez-Morillo M. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis in pediatrics: A diagnostic challenge. *Rev Esp Cir Ortop Traumatol*. 2019 Nov-Dec;63(6):447-450.
4. Hofmann SR, Kapplusch F, Girschick HJ, Morbach H, Pablik J, Ferguson PJ, et al. Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis (CRMO): Presentation, Pathogenesis, and Treatment. *Curr Osteoporos Rep*. 2017 Dec;15(6):542-554.
5. Oligbu G, Jacobs B, Khan T. The Dilemma of Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis. *Reumatol Clin*. 2020 Nov-Dec;16(6):490-492.
6. Khanna G, Sato TS, Ferguson P. Imaging of chronic recurrent multifocal osteomyelitis. *Radiographics*. 2009 Jul-Aug;29(4):1159-77.
7. Gicchino MF, Diplomatico M, Granato C, Capalbo D, Marzuillo P, Olivieri AN et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: a case report. *Ital J Pediatr*. 2018 Feb 17;44(1):26.

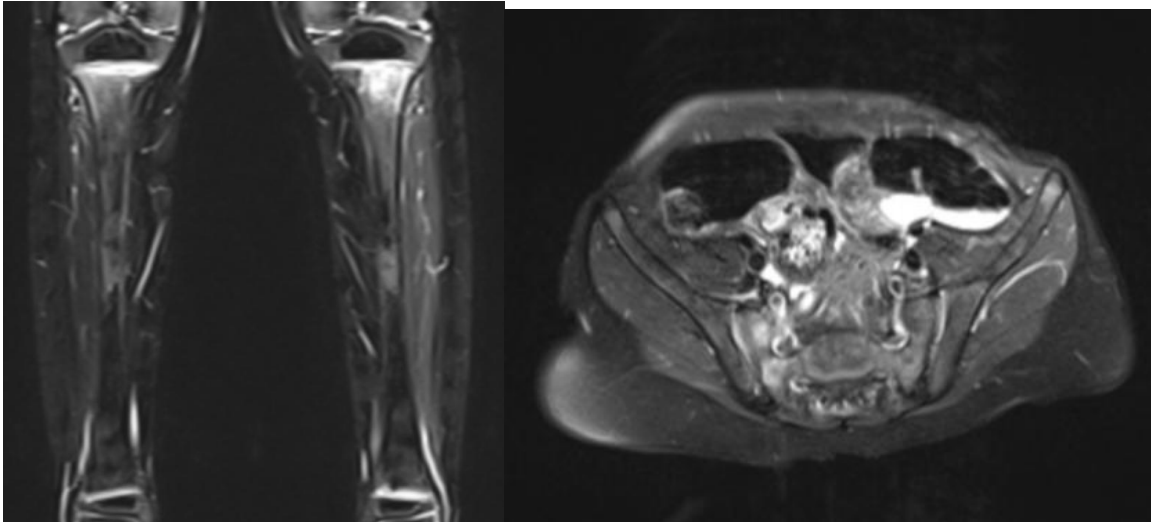
**TABLAS Y FIGURAS**



**Figura 1 y 2.** Mensuración de miembros y radiografía lateral de tobillo (Cortesía del Servicio de Radiodiagnóstico del Hospital Niño Jesús)



**Figura 3.** Gammagrafía ósea (Cortesía del Servicio de Medicina Nuclear del Hospital Niño Jesús)



**Figura 4 y5.** Cortes de la Resonancia Magnética. (Cortesía del Servicio de Radiodiagnóstico del Hospital Niño Jesús)