

NOTA CLÍNICA

Gac Med Bilbao. 2021;118(2):108-112



Síndrome de dolor regional complejo tipo I (SDRC-I) y trastorno de síntomas somáticos. A propósito de un caso con lesiones cutáneas

Costa-Requena Gema^a, Bru-Marco Luis^b, Corella-Estévez Pilar^b, Forés-Zaragoza Álvaro^b, Pérez-Plaza Aranzazu^b, Pérez-del-Caz María-Dolores^b

(a) *Consejería de Sanidad Universal y Salud Pública. Hospital Universitario y Politécnico La Fe. Servicio de Psiquiatría. Valencia, España*

(b) *Consejería de Sanidad Universal y Salud Pública. Hospital Universitario y Politécnico La Fe. Servicio de Cirugía Plástica y Quemados. Unidad de Grandes Quemados. Valencia, España*

Recibido el 13 de febrero de 2020; aceptado el 26 de noviembre de 2020

PALABRAS CLAVE

Distrofia Simpática
Refleja.
Trastornos
Somatomorfos.
Heridas piel.

Resumen:

Desde los antiguos presupuestos epistemológicos, el modelo biopsicosocial reza por dar una aproximación holística a la intervención médica. En el caso que presentamos prevalecen conjuntamente un trastorno psiquiátrico (trastorno de síntomas somáticos) con el diagnóstico del síndrome de dolor regional complejo (SDRC), además de presentar lesiones cutáneas en períodos repetidos. Las lesiones cutáneas reaparecen periódicamente durante más de quince años desde el diagnóstico del SDRC. La presencia del trastorno mental, con el sufrimiento concomitante del paciente, contraría la respuesta al tratamiento convencional. La complejidad clínica en este caso, pone en evidencia el requerimiento de un tratamiento interdisciplinar e individualizado.

© 2021 Academia de Ciencias Médicas de Bilbao. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Reflex Sympathetic
Dystrophy.
Somatoform Disorders.
Skin Wounds.

Complex regional pain syndrome type I (CRPS-I) and somatic symptom disorder. About a case with skin lesions

Abstract:

From the old epistemological assumptions, the biopsychosocial model prays for giving a holistic approach to medical intervention. In the case we present together, a psychiatric disorder (somatic symptom disorder) with the diagnosis of complex regional pain syndrome (CRPS) prevails, in addition to presenting skin lesion in repeated periods. Cutaneous lesions periodically reappear for more than fifteen years from the diagnosis of CRPS, the presence of mental disorder, with the concomitant

suffering of the patient contrary to the response to conventional treatment. The clinical complexity in this case, highlights the requirement of an interdisciplinary and individualized treatment.

© 2021 Academia de Ciencias Médicas de Bilbao. All rights reserved.

Introducción

La Asociación Internacional para el Estudio del Dolor (IASP) propone el término síndrome de dolor regional complejo (SDRC), unificador de la conocida distrofia simpática refleja, algodistrofia, o atrofia de Südeck^{1,2}. Refiriéndose a un cuadro de dolor neuropático originado tras un traumatismo o causa de inmovilización, en forma de dolor continuo, alodinia o hiperalgesia, desproporcionado en relación con la causa que lo produjo, acompañado de signos de edema, cambios en el flujo sanguíneo cutáneo, o actividad sudomotora anormal en el área del dolor, sin otra patología que justifique el dolor y la disfunción^{3,4,5}.

La IASP definió dos tipos de SDRC, tipo I (SDRC-I) en el que no se identifica ninguna lesión, y tipo II (causalgia), en la que se objetiva lesión nerviosa^{1,2}. El SDRC-I es un cuadro con presentación clínica diversa, curso variable, y respuesta destinada respecto a la fisiopatología, factores de riesgo y algoritmo terapéutico a seguir⁶.

Esta falta de conocimiento, ha generado debates sobre la inclusión de aspectos psiquiátricos en su etiología y manifestación clínica, llevando en algunos casos a la estigmatización del paciente⁵. La mayoría de estudios no hallan evidencia para confirmar que los pacientes con SDRC-I manifiesten trastornos psiquiátricos, en mayor medida que otros grupos de pacientes con dolor crónico^{5,7,8,9}, o la población general¹⁰. Las variables psicosociales puestas en relación con el SDRC-I son estresores vitales relacionados con pérdidas afectivas⁸, antecedentes familiares de dolor crónico o incapacidad funcional, antecedentes personales de síndrome depresivo¹¹ e infancia traumática⁸. Sin considerar la complejidad clínica del SDRC-I, caeríamos en el clásico dualismo al considerarlo como un trastorno genuinamente médico, o como trastorno neurológico funcional¹².

En el caso que presentamos prevalecía un trastorno psiquiátrico (trastorno de síntomas somáticos) junto a la superposición en el SDRC-I de lesiones cutáneas que reaparecían periódicamente.

Caso clínico

Varón de 51 años, casado, con dos hijos (de 22 y 20 años). El paciente tenía reconocida la incapacidad laboral permanente desde los 35 años, desde el 2002, tras sufrir un cuadro con características de accidente cerebrovascular. En su familia de origen, era el menor en una fratria de tres hermanos. Una hermana mayor, con 70 años, que presentaba daño cerebral congénito, y un hermano de 69 años.

Desde los 26 años el paciente estaba diagnosticado de síndrome neurológico funcional. A los 36

(2004) fue diagnosticado de distrofia simpática refleja en miembros superiores de hemicuerpo izquierdo. Inició el cuadro con dolor torácico irradiado a brazo izquierdo tras un catarro.

Posteriormente, presentó edema, tumefacción y cianosis. Por intenso dolor y pérdida de fuerza en el brazo izquierdo fue remitido a rehabilitación y clínica del dolor, donde se efectuó un bloqueo simpático, desapareciendo rápidamente el dolor, mejorando el edema, pero persistiendo la monoplejía braquial izquierda.

Ingresó en medicina interna, con edema en mano izquierda, y leve cianosis distal en ambos pies y tobillos. No movía espontáneamente el brazo y la mano, aunque con estímulos verbales consiguió movilizarlos y deambular con leve paresia crural izquierda.

A los 37 años (2005), se le implantó un neuroestimulador cervical y medular para reducción del dolor, asociado a movilizaciones. En este período apareció un nódulo ulcerado en el antebrazo afectado, fue tratado con presoterapia y vendajes durante dos meses. Acudió en un corto espacio de tiempo dos veces a las urgencias de su hospital por dolor torácico opresivo que irradiaba a cuello y hombro izquierdo, con sudoración y mareo.

La segunda vez, el malestar torácico se acompañó de temblor y disminución de consciencia (similar a una crisis conversiva o pseudoepileptiforme). Tras estos episodios, inició seguimientos por psiquiatría en la unidad de salud mental, diagnosticado de depresión neurótica con gran componente de ansiedad.

Siendo controlado por dermatología, volvieron a aparecer úlceras superficiales en antebrazo izquierdo con sobreinfección. En las biopsias había datos de lesión por rascado, y se planteaba una dermatitis artefacto. Fue tratado con prenda de compresión.

Con 42 años (2011) fue llevado a las urgencias de su hospital por pérdida de consciencia. No respondía a órdenes, con resistencia a apertura ocular. Tras varios intentos para despertar, finalmente abrió los ojos y comenzó a hablar.

Un año después, volvió con dermatología por presencia de una úlcera de evolución tórpida desde hacía un mes en el antebrazo izquierdo. Dermatología hizo derivación por urgencias al servicio de cirugía plástica del hospital terciario, y realizaron curas ambulatorias durante dos meses en la unidad de grandes quemados (UGQ). El paciente describía accidente cerebrovascular como desencadenante del SDRC-I. Se le realizó un estudio analítico de trombofilias, mostrando parámetros en rango normal.

Con 44 años (2013) fue llevado a urgencias, por cuadro similar comicial, sacudidas coordinadas de todo

el cuerpo y vómito. Todo cedió con diazepam. Mientras permanecía en observación, apareció un episodio de rigidez generalizada sin relajación de esfínteres, ni mordedura de lengua. No movilizaba extremidades al dolor. Tenía tóxicos en orina por benzodiazepinas.

Se hizo una interconsulta a psiquiatría, y dieron orientación diagnóstica de histeria de conversión versus crisis comicial. Estos episodios de “desvanecimiento” acompañados de pérdida de consciencia, parecían tener un componente emocional marcado y asociado a estresores familiares.

Tras caída casual y procedente de urgencias, el paciente ingresó en el servicio de COT por fractura tri-maleolar del tobillo derecho. Fue intervenido quirúrgicamente con placa de peroné y un tornillo medial.

En esta temporada falleció la madre, con 81 años, tras un deterioro de 11 años de evolución en contexto de demencia avanzada (2014).

Un año después, tuvo otra caída accidental con intenso dolor en el brazo, muñeca y codo izquierdo. Al no presentar sintomatología asociada, fue dado de alta con cabestrillo. Meses después, acudió a la unidad de enfermedades infecciosas por lesiones ulceradas en antebrazo izquierdo, remitido a cirugía plástica del hospital terciario, y tratado con curas ambulatorias.

Finales de 2018. Acudió por lesión necrótica en el brazo izquierdo a consulta de COT de su hospital, quienes lo derivaron a la UGQ. Las lesiones fueron tratadas como quemaduras de segundo grado. En una de las visitas, al retirar vendajes, impresionaba el olor a producto químico (parecía amoníaco). La lesión estaba más eritematosa y sucia respecto a la cura anterior y, por ello, sospecharon de lesiones autoinfligidas.

En quirófano, se hizo desbridamiento más autoinjerto de úlcera. En enero de 2019, fallecimiento del padre de forma súbita con avanzada edad. 90 años. El paciente y la esposa asumieron cuidado de la hermana, descuidando las recomendaciones de hacer reposo relativo, no coger peso, y mantener el brazo en alto.

Al mes, apareció una herida al lado del injerto, con mal aspecto, no estaba limpia, y exposición de musculatura. Esto afianzó la sospecha por parte del personal sanitario de lesiones autoinducidas. Bajo anestesia general, se hizo desbridamiento de herida. Tras la cirugía, el paciente mostró retraso significativo en despertar, con apertura ocular forzada, cerrando inmediatamente los ojos y sin respuesta verbal. Se hizo interconsulta a neurología y psiquiatría, y dieron orientación diagnóstica de episodio de simulación.

En las curas ambulatorias semanales en la UGQ, el injerto estaba prendido y la herida mostraba el tejido de granulación limpio. Así, se inició seguimiento por psicología clínica. El paciente expresó sentimiento de enfado y de humillación por sentirse inculcado en la generación de las heridas. Hablaba de forma reiterativa sobre su trayectoria hospitalaria hasta el diagnóstico del SDRC-I, y de los estresores familiares y laborales asociados.

Se mostraba apenado por el fallecimiento de la madre y del reciente fallecimiento del padre, y re-

fería el alto vínculo emocional con ellos. Explicaba que siempre fue percibido por los padres como una persona frágil, al ser el menor de los hermanos, y con gran diferencia de edad respecto a los dos mayores.

En junio de 2019, fue llevado a urgencias de su hospital por pérdida de consciencia, diagnosticado al alta de síncope versus histeria de conversión, y seguía con curas semanales en la UGQ. Así, apareció una nueva lesión proximal al defecto, y se recomendó incrementar la frecuencia de curas, entrenando a la mujer para que hiciera curas en el domicilio. Fue intervenido para desbridamiento y autoinjerto en antebrazo izquierdo, sin problemas en el despertar de la anestesia. Siguió con curas ambulatorias semanales, el injerto prendió en su mayoría, con la zona donante epitelizada casi por completo. Se espaciaron las curas en la UGQ, alternado con curas en domicilio que hacía la esposa.

Hubo otra pérdida del injerto, y volvió a quirófano para un reinjerto. Se programan las curas cada 48 horas, alternando las realizadas en el domicilio, con las visitas semanales en UGQ. Al mes, la herida tenía mejor aspecto y, a los tres meses, estaba totalmente epitelizada.

Discusión

Todavía resulta confuso intervenir sobre el SDRC-I. Una visión abierta del modelo biopsicosocial permitiría la conceptualización y abordaje interdisciplinar del SDRC-I, acercándonos a un modelo centrado en el paciente, que intenta interpretar el proceso de enfermar a través de la subjetividad de la persona¹³. La revisión de estudios evidencia la necesidad de una intervención interdisciplinar⁵, desde neurología^{3, 4}, reumatología⁶, dermatología¹⁴, psiquiatría y psicología clínica^{8, 11, 15}, rehabilitación^{4, 16} y anestesiología^{4, 11}.

El SDRC-I puede ser desencadenado por un acontecimiento estresante, un traumatismo menor, o sin una causa clara como desencadenante¹⁷. En nuestro caso, el paciente constantemente hacía referencia a estresores laborales que le abocaron a un accidente cerebrovascular, no recogido como tal en los informes médicos, y queda sin aclarar. El dolor, síntoma característico del SDRC-I, en nuestro caso quedó controlado por la implantación de un neuroestimulador medular¹⁸, permitiendo al paciente recuperar la funcionalidad en actividades de la vida diaria.

La fragilidad cutánea en los estadios finales del SDRC-I explicaría la aparición de úlceras, como una respuesta inusual ante un traumatismo mínimo por alteraciones del sistema nervioso y vascular encargados de mantener la integridad cutánea^{14, 19}. Como en nuestro caso, en otros estudios de pacientes con SDRC-I y úlceras cutáneas repetitivas, se sospechaba de lesiones autoinfligidas, por la morfología de las lesiones que suelen ser lineales y en zonas accesibles, o por la escasa respuesta a los tratamientos convencionales¹⁹.

Estas dudas ante las curas infructuosas, lastiman la genuinidad de la relación médico-paciente, y pue-

den llegar a consecuencias iatrogénicas, incluyendo intervenciones médicas invasivas innecesarias²⁰.

Históricamente, se ha relacionado el SDRC-I con la presencia de trastornos somatomorfos^{5, 9, 17, 21}. Aunque en pacientes con SDRC-I hay una alta comorbilidad con sintomatología depresiva, la prevalencia de trastornos psiquiátricos no es mayor que en la población general^{7, 11}. En nuestro caso, junto a la prevalencia de sintomatología depresiva, estaba el diagnóstico de trastorno de síntomas somáticos²¹. El paciente reflejaba niveles altos de sufrimiento asociados al diagnóstico del SDRC-I, con un discurso reiterativo sobre lo vivido, como algo traumático, convirtiéndose el SDRC-I en casi un rasgo de su identidad, y asumiendo un papel central alrededor del cual describe otros acontecimientos que le van ocurriendo durante los últimos 15 años de su vida. En nuestro caso, estresores familiares intensos, como enfermedades físicas crónicas, madre con enfermedad de Alzheimer, y hermana con probable parálisis cerebral, pudieron haber agudizado la presentación de sintomatología disociativa²¹, considerado característico de algunos pacientes con SDRC-I⁹.

Dada la diversidad de signos y síntomas en los que se puede manifestar el SDRC-I, habría que ampliar el espectro de intervención, requiriendo un tratamiento interdisciplinar e individualizado.

Declaraciones de auditoría

G. Costa ha participado en la concepción del artículo, revisión de historia clínica, y la escritura del manuscrito. L. Bru ayudó a la interpretación del caso clínico y revisión crítica del manuscrito. P. Corella, A. Forés, A. Pérez y M.D. Pérez revisaron los borradores del primer borrador con importantes aportaciones intelectuales, y aprobación de la versión final para su publicación.

Financiación

La presente investigación no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no hay conflicto de intereses.

Bibliografía

- International Association for the Study of Pain. Classification of chronic pain: Descriptions of chronic pain syndromes and definitions of pain terms (2^aed). En Merskey H, Bogduk N, editors. Seattle, Washington: IASP Press, 1994. p 40-3.
- Ruiz-López R. Síndromes de dolor regional complejo. Definición y nomenclatura. Implicaciones clínicas. *Rev Esp Reumatol* 1998; 25: 258-61.
- Serra Cadafau J, Montero Homs J. Exploración neurológica de la causalgia y de la distrofia simpático refleja. *Rev Esp Reumatol* 1998; 25: 276-83.
- Martínez-Salio A, Vicente-Fatela L, Acedo-Gutiérrez MS, Sanz-Ayan P, Almajo J, Urbano-López Nuño M, Rija del Valle C. Síndrome de dolor regional complejo tipo I: una enfermedad neurológica frecuente. A propósito de dos casos atípicos. *Rev Neurol* 2007; 44(4): 212-6.
- Feliu MH, Edwards CL. Psychologic factors in the development of complex regional pain syndrome: History, myth and evidence. *Clin J Pain* 2010; 26 (3): 258-63.
- Rodríguez Moreno J, Gómez Vaquero C. Manifestaciones clínicas de la distrofia simpático refleja en la clínica reumatológica. *Rev Esp Reumatol* 1998; 25: 262-4.
- Monti DA, Herring CL, Schwartzman RJ, Marchese M. Personality assessment of patients with complex regional pain syndrome type I. *Clinical Journal of Pain* 1998; 14 (4): 295-302.
- Pagerols Bonilla M. Síndrome de dolor regional complejo tipo I: aspectos psicosociales. *Rev Esp Reumatol* 1998; 25: 265-9.
- Reedijk WB, van Rijn MA, Roelofs K, Tuijl JP, Marinus J, van Hilten JJ. P. Psychological features of patients with complex regional pain syndrome type I related dystonia. *Movement Disorders* 2008; 23 (11): 1551-9. doi: 10.1002/mds.22159
- Beerthuizen A, Stronks DL, Huygen FJ, et al. The association between psychological factors and the development of complex regional pain syndrome type 1 (CRPS1) - A prospective multicenter study. *Eur J Pain*. 2011; doi: 10.1016/j.ejpain.2011.02.008
- Brinkers M, Rumpelt P, Lux A, Kretzschmar M, Pfau G. Psychiatric disorders in complex regional pain syndrome (CRPS): The role of the consultation-liaison psychiatrist. *Pain Research and Management* 2018. Article ID 2894360, 8 pages. doi: org/10.1155/2018/2894360
- Popkirov S, Hoeritzauer I, Calvin L, Carson AJ, Stone J. Complex regional pain syndrome and functional neurological disorders: time for reconciliation. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2018;0: 1-7. doi:10.1136/jnnp-2018-318298
- Borrell F. El modelo biopsicosocial en evolución. *Med Clin (Barc)* 2002; 119 (5): 175-9.
- Greipp ME, Thomas AF. Skin lesions occurring in clients with reflex sympathetic dystrophy syndrome. *Journal Neuroscience Nursing* 1994; 26(6): 342-6.
- Neal LA. Complex regional pain syndrome: the role of the psychiatrist as an expert witness. *Med Sci Law* 2009; 49 (4): 241-6.
- Veizi E, Chelimsky TC, Janata JW. Chronic regional pain syndrome: what specialized rehabilitation services do patients require? *Curr Pain Headache Rep* 2012; 16: 139-46. doi: 10.1007/s11916-012-0253-3
- Bass C, Yates G. Complex regional pain syndrome type I in the medico-legal setting: High rates of somatoform disorders, opiate use and diagnostic uncertainty. *Medicine, Science and the Law* 2018; 58 (3): 147-55.
- Gómez-García de Paso A, Muñoz-Martín A, Robaina FJ. Neuroelectroestimulación medular en el sín-

- drome doloroso regional complejo Tipo I. Estudio de casos. *Rev Soc Esp Dolor* 2007; 14 (8): 583-8.
19. Vergara A, Isarria MJ, Sánchez-Caminero MP, Guerra A. Distrofia simpática refleja: descripción de un caso con lesiones cutáneas. *Actas Dermosifiliogr* 2005; 96 (8): 529-30.
 20. Mailis-Gagnon A, Nicholson K, Blumberger D, Zurowski M. Characteristics and Period Prevalence of Self-induced Disorder in Patients Referred to a Pain Clinic with the Diagnosis of Complex Regional Pain Syndrome. *Clin J Pain* 2008; 24 (2): 176-85.333
 21. American Psychiatric Association. *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders*. 5th ed. Washington, DC: American Psychiatric Publishing; 2013.