

Síndrome de Lemierre, reporte de un caso

Lemierre syndrome: A case report

Matías Winter D¹, Andrea Saavedra B¹, Carolina Grau L¹, Jorge Caro L¹.

RESUMEN

El síndrome de Lemierre es una complicación muy poco frecuente de una infección orofaríngea, que progresa con tromboflebitis séptica secundaria e infecciones embólicas frecuentes. Presentamos el caso de una mujer de 20 años que inició un cuadro de odinofagia y fiebre, el cual progresó rápidamente a un absceso periamigdalino con trombosis de la vena yugular interna ipsilateral, embolias sépticas pulmonares y meningitis. Se manejó con drenaje del absceso por punción, terapia antibiótica de amplio espectro y anticoagulación respondiendo favorablemente, siendo dada de alta en buenas condiciones luego de 35 días de hospitalización.

Con la terapia antimicrobiana, casos como éste son poco frecuentes, incluso a veces olvidados, pero dado su gravedad deben considerarse en cuadros faríngeos de evolución tórpida o ante la aparición de signos neurológicos o sépticos.

Palabras clave: Síndrome Lemierre, embolias sépticas pulmonares, meningitis.

ABSTRACT

Lemierre syndrome is a rare complication of oropharyngeal infection which progresses with secondary septic thrombophlebitis and embolic infections. A 20 years-old woman started with odynophagia and fever, which progressed rapidly to a peritonsillar abscess with thrombosis of the ipsilateral internal jugular vein, septic pulmonary emboli and meningitis. She was managed with abscess drainage puncture, broad-spectrum antibiotic therapy and anticoagulant responding favorably, and was discharged in good condition after 35 days of hospitalization.

Since the use of antimicrobial therapy, cases like these are rare, sometimes forgotten, but given its severity should be considered in pharyngeal torpid illness or at the onset of neurological signs or sepsis.

Key words: Lemierre syndrome, pulmonary septic emboli, meningitis.

¹ Médico Cirujano. Departamento de Otorrinolaringología, Pontificia Universidad Católica de Chile.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Lemierre, también conocido como sepsis posangina, es una complicación poco frecuente de infecciones orofaríngeas causadas principalmente por el anaerobio *Fusobacterium necrophorum*^{1,2}. Este síndrome, que se presenta entre 4 a 12 días posterior a una faringitis, se caracteriza por trombosis de la vena yugular interna asociado a embolias sépticas pulmonares que puede evolucionar a sepsis severa³.

El microbiólogo André Lemierre fue el primero en describir claramente este cuadro y asociarlo al agente causal en 1936 al reportar 20 casos de pacientes que presentaron sepsis, lesiones embólicas pulmonares posterior a faringitis y el aislamiento del *Bacillus funduliformis* (actualmente conocido como *Fusobacterium necrophorum*)⁴.

Con la introducción de los antibióticos la enfermedad disminuyó de manera importante llegando a ser conocida como la enfermedad olvidada^{3,5,6}. En un estudio danés realizado entre los años 1990 y 1995 encontró una incidencia de 3,6 casos por millón de habitantes por año⁷. En las últimas déca-

das se ha descrito un aumento de los casos, pero permanece siendo un cuadro poco común^{2,7,8}. Este aumento de casos podría deberse a un aumento del conocimiento del síndrome, a cambios poblacionales o al uso más restrictivo de antibióticos para tratar cuadros de faringitis^{1,2,9}.

CASO CLÍNICO

Presentamos el caso de una mujer de 20 años, con antecedentes de asma intermitente, que consultó en el servicio de urgencia por un cuadro de odinofagia, decaimiento y fiebre hasta 39°C, de dos días de evolución. Se le diagnosticó amigdalitis pultácea recibiendo penicilina benzatina 1.200.000 IM por una vez. El cuadro cedió parcialmente, pero tres días después evolucionó febril, con compromiso del estado general y trismus, por lo que consulta en otorrinolaringología donde se le indica hospitalización por sospecha de absceso periamigdalino izquierdo y sepsis.

Al ingreso se encontraba febril, taquipneica y hemodinámicamente estable. La movilidad cervical se encontraba limitada, con trismus y abombamiento del pilar anterior izquierdo que alcanzaba la línea media. Además presentaba edema facial y ptosis palpebral ipsilateral, midriasis reactiva y oftalmoparesia del III, IV y VI par.

Se realizó nasofaringolaringoscopia (NFL) que mostró medialización de la pared faríngea lateral izquierda sin compromiso obstructivo de la vía aérea. Sus exámenes generales de ingreso fueron: hematocrito 36,1%, leucocitos 32.700 cel/mm³ con 95,1% de segmentados, plaquetas 68.000 cel/mm³, velocidad de eritrosedimentación 34 mm/hora, proteína C reactiva 25,65 mg/dL (0-1 mg/dl), albúmina 2,4 gr/dL y bilirrubina total 1,75 mg/dL. El cultivo aeróbico de secreción faríngea y los hemocultivos² resultaron negativos.

La tomografía computarizada (TC) de cuello del ingreso mostró un proceso inflamatorio centrado en el espacio faringomucoso, parafaríngeo izquierdo de aspecto flegmonoso y con áreas de abscedación de 47 x 32 x 20 mm (Figura 1). Además trombosis de vena yugular interna y de venas superficiales cervicales izquierdas (Figura 2).

Dado los síntomas neurológicos se decide realizar una resonancia magnética (RM) de cerebro, en la cual

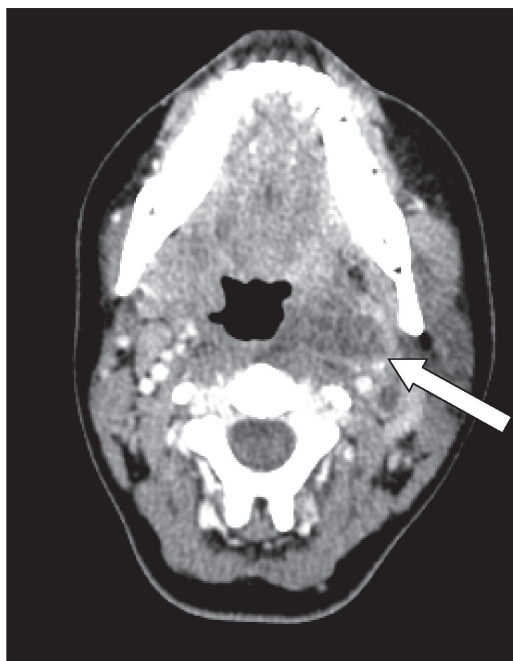


Figura 1. TC de cuello con contraste. La flecha muestra el proceso inflamatorio de aspecto flegmonoso con áreas de abscedación.

se observaron hallazgos compatibles con trombosis de seno cavernoso y vena yugular interna izquierda. Se realizó punción lumbar que mostró 1.400 células blancas con 40% de PMN, Gram sin bacterias.

La TC de tórax mostró focos de condensación pulmonar bilaterales, algunos con cavitación central, sugerentes de embolia séptica (Figura 3).

La paciente fue hospitalizada en cuidados intermedios, donde se manejó con esquema antibiótico asociado de ceftriaxona y clindamicina al que posteriormente se agrega penicilina endovenosa y metronidazol.

Al lograr mayor estabilidad clínica de la paciente y recuperación de la trombocitopenia, se puncionó el absceso periamigdalino obteniendo 4 cc de pus. El cultivo aeróbico del contenido resultó positivo para *Enterococcus faecalis*.

Evolucionó favorablemente hasta el séptimo día de hospitalización, donde presentó descompensación de signos vitales, asociados a fiebre y compromiso del estado general. Se estudiaron focos secundarios con TC de tórax, abdomen y pelvis que mostraron disminución del absceso periamigdalino; tromboflebitis de venas yugulares interna y externa izquierdas, sin variaciones respecto a examen previo, y derrame pleural bilateral moderado, además de múltiples focos compatibles con embolias sépticas pulmonares con desarrollo de cavitaciones.

Por lo anterior se decidió cambio de esquema a vancomicina y meropenem, evolucionando favorablemente con descenso de parámetros inflamatorios.

Al cabo de 35 días de hospitalización y habiendo recibido 28 días de meropenem más vancomicina fue dada de alta en buenas condiciones generales, con

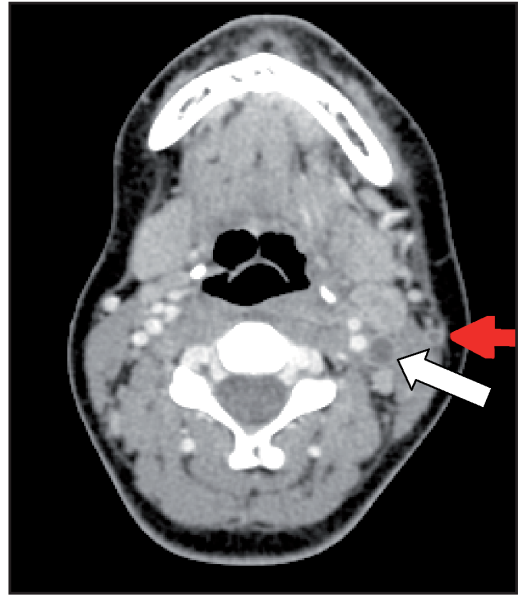


Figura 2. TC de cuello con contraste. La flecha grande muestra la trombosis de la vena yugular interna. La flecha delgada muestra la trombosis de una vena cervical superficial.

ptosis izquierda residual. Se dejó con tratamiento antibiótico ambulatorio (amoxicilina + ácido clavulánico), terapia anticoagulante y controles con oftalmología, otorrinolaringología y cardiología al alta.

DISCUSIÓN

El síndrome de Lemierre es una enfermedad poco común que generalmente afecta a jóvenes sanos^{7,10,11}. Sin embargo, se ha observado un



Figura 3. TC de tórax. Las flechas muestran los múltiples focos de condensación con desarrollo de cavitaciones a derecha.

aumento en el reporte de casos en este grupo^{12,13}.

Generalmente comienza como un cuadro de faringitis con fiebre alta, que progresa con embolias sépticas y luego con sepsis similar a nuestro caso. La mortalidad actualmente, con el uso de terapia antibiótica fluctúa entre 4% y 22%^{1,3}.

El tratamiento se basa en la administración de antibióticos endovenosos y luego terapia oral prolongada⁵, como se realizó en nuestro caso.

Appelbaum y cols, el año 1990 encontraron que el 40% de las *Fusobacterium* aisladas producían β-lactamasas¹⁴. Por lo que se recomienda el uso de antibióticos resistentes a las β-lactamasas con actividad anaeróbica, como ampicilina-sulbactam, metronidazol o clindamicina^{15,16}.

La principal etiología bacteriana asociada es el *Fusobacterium necrophorum*, sin embargo, en nuestro caso sólo se obtuvo un cultivo positivo para *Enterococcus faecalis* a través de punción del absceso periamigdalino. No se realizó cultivo anaeróbico, práctica recomendable en la evaluación de estos pacientes, dado que el aislamiento de *Fusobacterium necrophorum* es difícil y puede tardar entre 6-8 días de incubación¹⁷.

La presentación de nuestro paciente con faringitis y dolor cervical se ha descrito previamente en la literatura con una frecuencia de 76%¹.

Las embolias sépticas son una complicación muy frecuente¹⁸, siendo el pulmón el órgano más afectado en el 80%-90% de las veces, describiéndose otras localizaciones como articulaciones, piel, huesos, meninges y otros órganos¹⁹.

La meningitis siendo la complicación más temida se ha descrito que es de ocurrencia rara y en general con asociación a otitis media en niños^{5,20}, sin embargo nuestra paciente no presentó otitis.

Cuando un paciente refiere odinofagia persistente o recurrente la razón de probabilidades para este cuadro aumenta a 21%¹.

En conclusión, nos parece importante seguir considerando esta complicación entre los diagnósticos diferenciales de un cuadro de amigdalitis o faringitis de evolución tórpida o séptica. Por lo que se requiere un alto índice de sospecha ante todo cuadro séptico en jóvenes tras una infección orofaríngea²¹.

Además, es importante estar atentos a la aparición de signos neurológicos y/o sépticos

para llegar a diagnosticarlo. En estos pacientes es esencial el uso de imágenes complementarias, el manejo en centros de alta complejidad y trabajo interdisciplinario.

BIBLIOGRAFÍA

1. KARKOS PD, ASRANI S, KARKOS C, LEONG S, THEOCHARI E, ALEXOPOULOU T, ASSIMAKOPOULOS A. Lemierre's syndrome: a systematic review. *Laryngoscope* 2009; 119: 1552-9.
2. RIORDAN T. Human infection with *Fusobacterium necrophorum* (necrobacillosis), with a focus on Lemierre's syndrome. *Clin Microbiol Rev* 2007; 20: 622-59.
3. CHIRINOS J, LICHENSTEIN D, GARCÍA J, TAMARIZ L. The evolution of Lemierre syndrome: report of 2 cases and review of the literature. *Medicine (Baltimore)* 2002; 81: 458-65.
4. LEMIERRE A. On certain septicaemias due to anaerobic organisms. *Lancet* 1936; 701-3.
5. HAGELSKJAER L, PRAG J. Human Necrobacillosis, with emphasis on Lemierre's syndrome. *Clin Infect Dis* 2000; 31: 524-32.
6. SCREATON N, RAVENEL J, LEHNER P, HEITZMAN E, FLOWER C. Lemierre Syndrome: forgotten but not extinct-report of four cases. *Radiology* 1999; 213: 369-74.
7. HAGELSKJAER L, PRAG J, MALCZYNSKI J, KRISTENSEN J. Incidence and clinical epidemiology of necrobacillosis, including Lemierre's syndrome in Denmark 1990-1995. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis* 1998; 17: 561-5.
8. BRAZIER J, MAY V, YUSUF E, DUEREN B. *Fusobacterium necrophorum* infections in England and Wales 1990-2000. *J Med Microbiol* 2002; 51: 269-72.
9. WEEKS D, KATZ D, SAXON P, KUBAL W. Lemierre syndrome: report of five new cases and literature review. *Emerg Radiol* 2010; 17: 323-8.
10. LEUGERES C, CLOVER R. Lemierre syndrome: postanginal sepsis. *J Am Board Fam Pract* 1995; 8: 384-91.
11. KISSER U, GURKOV R, FLATZ W, BERGHAUS A, REICHEL O. Lemierre syndrome: a case report. *American Journal of Otolaryngology* 2012; 33: 159-62.
12. WRIGHT W, SHINER C, RIBES J. Lemierre Syndrome. *South Med J* 2012; 105: 283-8.

13. RAMÍREZ S, HILD T, RUDOLPH C, STY J, KEHL S, HAVENS P, ET AL. Increased diagnosis of Lemierre syndrome and other fusobacterium necrophorum infections at a children's hospital. *Pediatrics* 2003; 112: 380.
14. APPELBAUM P, SPANGLER S, JACOBS M. Beta-lactamase production and susceptibilities to amoxicillin, amoxicillin-clavulanate, ticarcillin, ticarcillin-clavulanate, cefoxitin, imipenem, and metronidazole of 320 non-Bacteroides fragilis Bacteroides isolates and 129 Fusobacteria from 28 U.S. centers. *Antimicrob Agents Chemother* 1990; 34: 1546-9.
15. BROOKS I. Infectious caused by beta lactamase producing Fusobacterium. *Pediatr Infect Dis J* 1993; 532-3.
16. GOLPE R, MARIN B, ALONSO M. Lemierre's syndrome (necrobacillosis). *Postgrad Med J* 1999; 75: 141-4.
17. DUONG M, WENGER J. Lemierre syndrome. *Pediatr Emerg Care* 2005; 21: 589-93.
18. FERNÁNDEZ J, DONES I, CARCELÉN M, GUTIÉRREZ J, LEA C, CAMACHO A. Síndrome de Lemierre. Descripción de dos nuevos casos y revisión de la literatura. *An Med Interna* 2002; 19: 139-42.
19. VOGEL L, BOYER K. Metastatic complications of Fusobacterium necrophorum sepsis. Two cases of Lemierre's postanginal septicaemia. *Am J Dis Child* 1980; 134: 356-8.
20. TARNIVK A. Anaerobic meningitis in children. *Eur J Clin Microbiol* 1986; 5: 271-4.
21. GARCÍA DÍAZ F. Infección orofaríngea y sepsis: ¿una relación olvidada? *Emergencias* 2006; 18: 118-21.

Dirección: Matías Winter Domínguez
 Departamento Otorrinolaringología, Hospital Clínico Pontificia Universidad Católica de Chile
 E mail: drmatiaswinter@gmail.com