



## OSTEOMIELITIS ENFISEMATOSA DEL SACRO. PRESENTACIÓN DE CASO

Blanca Janine Rodríguez Borrego <sup>1</sup>. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7334-1135>

Mányeles Brito Vázquez <sup>2</sup>. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-5542-2679>

María de los Ángeles Vázquez Rodríguez <sup>3</sup>. ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-6635-5072>

### RESUMEN

**Fundamentación:** la osteomielitis enfisematosa (OE) es una afección rara pero grave, especialmente en pacientes con infecciones debidas a organismos productores de gases. **Objetivo:** presentar el caso de un adolescente de 14 años que evolucionó a una OE sacra secundaria a una infección de partes blandas. **Presentación del caso:** adolescente con antecedente de absceso escrotal que ingresa con signos de sepsis asociados a dolor y marcha antálgica de la pierna izquierda. En los estudios realizados se diagnosticó una osteomielitis enfisematosa sacra por estafilococo aureus coagulasa negativo, que evolucionó favorablemente después del drenaje de la colección intraósea. **Conclusiones:** el diagnóstico precoz y un tratamiento inmediato son cruciales para prevenir las consecuencias potencialmente devastadoras de la enfermedad.

**Palabras clave:** osteomielitis enfisematosa; gas intraóseo; sacro; presentación de caso.

### INTRODUCCIÓN

La osteomielitis enfisematosa (OE) es una afección rara pero grave, que también puede ser fatal. La formación de gas intraóseo en el esqueleto extraaxial en ausencia de trauma, biopsia, heridas penetrantes y fracturas, es sugestivo de OE, especialmente en pacientes con infecciones debidas a organismos productores de gases <sup>(1)</sup>. Entre los patógenos más comúnmente implicados se incluyen *Escherichia coli* (28,6%), *Klebsiella pneumoniae* (20%), *Bacteroides spp* (20%) y *Fusobacterium necrophorum* (14,3%). En los informes



de pacientes postoperatorios, los organismos causales son *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus spp* y *Enterococcus spp* <sup>(2)</sup>. Descrita por primera vez en 1981 por Ram y colaboradores, y luego por Patton en 1983 <sup>(3)</sup>, tiene una tasa de mortalidad reportada del 32%; por lo que el diagnóstico precoz es fundamental para iniciar el tratamiento y disminuir los resultados letales <sup>(4,5)</sup>.

Por lo infrecuente de esta entidad, con solo una treintena de casos publicados en PubMed en los últimos cinco años, se presenta el caso de un adolescente de 14 años; que luego del antecedente de un absceso escrotal que drenó espontáneamente, ingresa en la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP) con signos de sepsis asociados a dolor y marcha antálgica de la pierna izquierda. En los estudios realizados se diagnosticó una osteomielitis enfisematosa sacra por estafilococo aureus coagulasa negativo, que evolucionó favorablemente después del drenaje de la colección intraósea.

### **PRESENTACIÓN DE CASO**

Paciente EGP masculino de 14 años, con antecedentes de salud aparente, acude al policlínico de su municipio de residencia debido a un absceso del escroto izquierdo (Figura 1).



Fig.1: Tumoración fluctuante escrotal izquierda en relación con absceso a ese nivel

Se le indica tratamiento antibiótico, analgésico y antiinflamatorio durante 7 días y el absceso drena espontáneamente. Cinco días después acudió a su médico de asistencia con fiebre, tos, dolor de garganta y en punta de costado. Se le



realiza Rx de tórax, que muestra lesiones inflamatorias bilaterales, y es remitido al Hospital Pediátrico Provincial.

Durante la estadía hospitalaria es admitido en dos ocasiones en la UCIP por empeoramiento del cuadro respiratorio y toma del estado general, con varios criterios de Síndrome de Respuesta Inflamatoria Sistémica (SRIS), como temperatura corporal  $> 38\text{ }^{\circ}\text{C}$ ; frecuencia cardiaca  $> 90$  latidos por minuto; frecuencia respiratoria  $> 20$  respiraciones por minuto; y recuento leucocitario  $> 12\ 000/\text{mm}^3$ , con presencia de células stab en periferia; por lo que recibió antibioticoterapia de amplio espectro. Se indica Tomografía Computada (TC) de tórax y mediastino para re-evaluación de las lesiones, que muestra consolidación e infiltrados parenquimatosos bibasales posteriores, con derrame pleural asociado de pequeña cuantía (Figura 2).

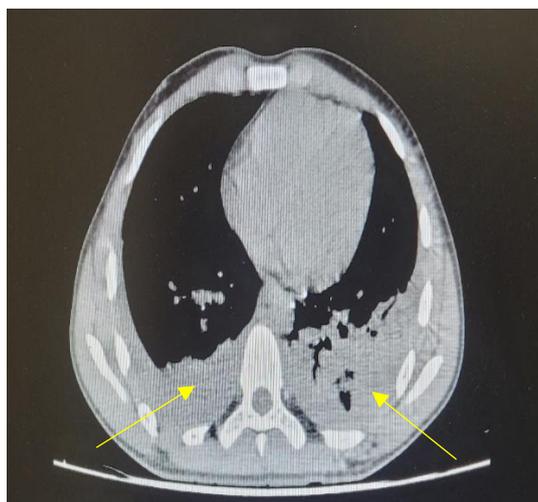


Fig. 2: TC de tórax y mediastino. Infiltrados parenquimatosos bibasales posteriores asociados a derrame pleural de pequeña cuantía.

Asociado al cuadro respiratorio, comienza con marcha antalgica y dolor en la cadera y pierna izquierda, y se indica:

- Ultrasonido de partes blandas: realizado en varias ocasiones, no revela colección de tejidos blandos o efusión articular.
- Radiografías de pelvis y femur proximal normales.
- TAC de pelvis ósea: revela una imagen en apolillado dado por la presencia de gas intraóseo, con apariencia de “piedra pomez” del ala izquierda del hueso sacro; así como pequeñas burbujas de aire en los tejidos blandos de la pelvis



adyacentes al hueso (Figura 3), emitiéndose el diagnóstico de osteomielitis enfisematosa sacra.



Fig. 3: A): TC de pelvis: Signo de la piedra pómez, típico de OE. B) Vista magnificada del ala izquierda sacra.

Se realiza punción del hueso guiada por tomografía, obteniéndose alrededor de 70 cc de un líquido oscuro y achocolatado. El cultivo realizado arrojó un estafilococo aureus coagulasa negativo.

Después de la evacuación (Figura 4), el paciente evolucionó satisfactoriamente con mejoría evidente del cuadro clínico, y se trasladó a sala convencional para culminar tratamiento antibiótico. Actualmente se encuentra en seguimiento por Ortopedia.



Fig. 4: TC evolutiva después de la intervención quirúrgica.



## COMENTARIOS

La osteomielitis enfisematosa (OE) es una enfermedad extremadamente rara y potencialmente mortal, con un reporte de mortalidad de alrededor del 30%, caracterizada por lóculos de gas intraóseo. La etiología exacta es desconocida; no obstante, varias comorbilidades subyacentes como la diabetes mellitus, el abuso del alcohol, procesos malignos, sicklemlia, uso de esteroides y otras condiciones que provocan inmunosupresión, pueden predisponer a esta enfermedad <sup>(6)</sup>.

La diseminación hematológica o por contigüidad ha sido propuesta como mecanismo en el desarrollo de OE <sup>(7)</sup>, y existen reportes de infecciones secundarias a fuentes intra-abdominales, cirugía espinal reciente y afecciones de la piel y tejidos blandos <sup>(8)</sup>, como en el presente caso con el antecedente de un absceso escrotal.

La presencia de gas intraóseo en el esqueleto apendicular en ausencia de historia de cirugía o trauma, es altamente sugestivo de OE. Sin embargo, su presencia en los cuerpos vertebrales es generalmente debido a causas no infecciosas, comúnmente procesos degenerativos <sup>(9)</sup>.

Lee et al <sup>(10)</sup>, realizaron una amplia búsqueda en las principales bases de datos bibliográficas Scopus y PubMed sobre OE de la columna, encontrando el reporte de 29 casos, sobre los cuales basaron una estadística. En este análisis predominó el sexo femenino sobre el masculino; la edad promedio de aparición fue de 59.9 años, con sólo un caso pediátrico reportado -una adolescente femenina-. En cuanto a las comorbilidades, solo 4 pacientes no manifestaron ninguna enfermedad asociada, siendo la mayoría de los casos enfermos diabéticos, con cáncer, alcohólicos o con uso prolongado de esteroides. En el presente caso se trata de un adolescente con antecedentes de salud aparente, por lo que lo hace notorio, al ser de la edad pediátrica y no tener comorbilidades asociadas.

Sahyun Sung et al <sup>(11)</sup>, también hicieron una revisión similar aportando datos como que los sitios más frecuentes de infección fueron las vértebras, seguido de la pelvis, fémur, tibia/fíbula, pie y esternón.



La infección puede ser monomicrobiana o polimicrobiana, y los gérmenes más comúnmente aislados son miembros de la familia de las Enterobacterias o anaerobios <sup>(12)</sup>.

En la revisión de Sahyun Sung <sup>(11)</sup>, la mayoría de los casos fueron monomicrobianos. Los agentes causales más frecuentes fueron *Escherichia coli*, *Klebsiella pneumoniae*, *Bacteroides species* y *Fusobacterium*, los cuales son organismos formadores de gas. En los informes de pacientes postoperatorios, los organismos causales son *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus spp* y *Enterococcus spp* <sup>(2)</sup>, como en este paciente con drenaje previo de absceso de partes blandas.

Según la revisión de Lee <sup>(10)</sup>, el dolor fue el síntoma de presentación más común. También se informaron otros síntomas como un déficit neurológico en el 27,6% de los pacientes de esta serie de OE espinal. En el entorno clínico apropiado, el diagnóstico temprano es esencial dados los devastadores resultados de la OE espinal. La mayoría de los pacientes con OE de columna presentaron fiebre (62,1%); y el 87,5% presentaron sepsis al ingreso con dos o más criterios de SRIS. En el presente informe de caso, el paciente requirió dos ingresos en UCIP por deterioro del cuadro clínico con varios criterios de SRIS, como temperatura corporal > 38 °C; frecuencia cardiaca > 90 latidos por minuto; frecuencia respiratoria > 20 respiraciones por minuto; y recuento leucocitario > 12 000/mm<sup>3</sup>, con presencia de células stab en periferia.

El diagnóstico de la OE es principalmente radiológico <sup>(2,13)</sup>. Las radiografías convencionales son el pilar de las imágenes en situaciones agudas; sin embargo, el diagnóstico de gas intraóseo es desafiante en ellas <sup>(10, 13)</sup>. La ecografía tiene un uso muy limitado, ya que es difícil diagnosticar aire en los tejidos blandos <sup>(9)</sup>.

La TC, por otro lado, es muy sensible en la demostración de los lóculos de gas y es respaldado por la revisión de informes de casos publicados <sup>(10, 13, 15, 16)</sup>.

Recientemente, Small et al. <sup>(14)</sup>, han propuesto la 'piedra pómez' como signo radiológico para identificar casos de OE debido a la semejanza de la imagen con la apariencia superficial de esta piedra, y se define como al menos tres focos de gas milimétricos irregulares (2–5 mm) <sup>(10)</sup>; hallazgo presente en el 96% de los casos. También indicaron que, a diferencia de las tradicionales



osteomielitis, la mayoría (79%) de los casos de OE no se asociaron con destrucción cortical del hueso. Situación similar se presentó en el paciente en cuestión, con radiografías y ultrasonidos de partes blandas negativos; y cuya presencia de gas intraóseo fue diagnosticada por TC, con respeto de la cortical, pero sí se observó presencia de aire en las partes blandas yuxtaarticulares.

La TC es capaz de detectar y definir la extensión de las colecciones gaseosas intraóseas y de partes blandas, así como de revelar la posible presencia de abscesos. En particular, el patrón de distribución de gas puede ayudar al diagnóstico diferencial: un patrón lineal y bien definido de distribución de gas sin alteración en el tejido adyacente sugiere cambios degenerativos (p. ej., neumatoquistes intraóseos, quistes subcondrales, nódulos de Schmorl), mientras que un patrón burbujeante e irregular puede considerarse patognomónico de OE <sup>(16)</sup>.

Si bien la Resonancia Magnética (RM) sigue siendo la mejor modalidad de imagen para identificar lesiones osteonecróticas y cambios en los tejidos blandos, la TC es excelente para detectar cambios óseos y gases. El gas intraóseo puede aparecer en RM como focos hipointensos en imágenes potenciadas en T1 y T2 con un artefacto floreciente correspondiente en gradient-weighted images. Sin embargo, esta apariencia en la resonancia magnética no es específica para gas, como se puede demostrar con hemoderivados, materiales metálicos o hueso esclerótico. Por eso, La TC es más sensible y específica para la detección de lesiones gaseosas intraóseas <sup>(2)</sup>.

La RM generalmente se considera como la modalidad de imagen de segunda línea; sin embargo, puede ser desafiante en la delineación del gas dentro del hueso. Los otros signos como edema de la médula ósea, destrucción cortical, el realce anormal del contraste y las acumulaciones de líquido circundante pueden ayudar a diagnosticar con precisión una infección y guiar el tratamiento <sup>(13)</sup>.

Las pautas de enfermedades infecciosas indican que la biopsia guiada por imágenes se recomienda solo cuando no se conoce un diagnóstico microbiológico a partir de sangre, orina u otras pruebas serológicas. De hecho, otros informes en la literatura indican que la biopsia guiada por imágenes



demuestra una baja probabilidad de identificar microbios específicos. En general, la Sociedad de Enfermedades Infecciosas de América (IDSA) recomienda la biopsia guiada por imágenes y/o la biopsia abierta cuando no se puede identificar un organismo causal o si la terapia con antibióticos no es efectiva <sup>(10)</sup>. En este paciente se realizó la biopsia con objetivo diagnóstico-terapéutico en aras de drenar la colección y mejorar los síntomas compresivos que causaba; así como dirigir la terapia antibiótica según antibiograma, por falla terapéutica inicial.

En el tratamiento de la OE es imperativo el reconocimiento eficiente y el inicio rápido de la terapia con antibióticos. Aunque la terapia dirigida es ideal, en muchos de los casos informados, se inició una terapia antibiótica empírica <sup>(10)</sup>. La intervención quirúrgica por desbridamiento y el tratamiento antibiótico específico del microorganismo son las modalidades de elección en la terapia actual <sup>(2)</sup>. Se ha recomendado que la duración de la terapia con antibióticos sea de 4 a 6 semanas, similar a la de la osteomielitis clásica <sup>(8)</sup>.

## **CONCLUSIONES**

La osteomielitis enfisematosa es una afección rara pero grave, por lo que el diagnóstico precoz y un tratamiento inmediato son cruciales para prevenir las consecuencias potencialmente devastadoras de la enfermedad. El gas intraóseo a forma de pequeños lóculos es un signo raro pero alarmante, patognomónico de la enfermedad especialmente en el esqueleto axial. La prueba de oro para el diagnóstico es la TC; y una vez diagnosticada se impone tratamiento antibiótico de amplio espectro asociado, en la mayoría de los casos, a tratamiento quirúrgico.

## **REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS**

1. Onob R, Uehara K, Kitagawa I. Emphysematous Osteomyelitis of the Spine: A Case Report and Literature Review. *Intern Med*, 2018; 57: 2081-2087.
2. Chamsi Basha A, Khalifa MA, Albadr F, Kaid J, Alsakkaf H. Hip bone osteonecrosis with intraosseous pneumatosis after abdominal aortic aneurysm repair: a case of emphysematous osteomyelitis. *BJR Case Rep* 2020; 7: 20200138.
3. Acosta LL, Vallejo V., Guerrero JD., Márquez P. Osteomielitis enfisematosa en el pie: una localización inusual. *Rev Chil Radiol*. 2022; 28(2):71-73



4. Fotios-Panagiotis T et al. Simultaneous Diagnosis of Emphysematous Osteomyelitis and Emphysematous Pyelonephritis in a Diabetic Patient. *Am J Case Rep*, 2019; 20: 1793-1796. DOI: 10.12659/AJCR.920006
5. Elshikh A, Gowda N, Glass L, et al. Emphysematous osteomyelitis of the clavicle: a pleural process? *BMJ Case Rep* 2020; 13:e235764. doi:10.1136/bcr-2020-235764
6. Iftikhar S, Iftikhar S, Ijaz N, et al. A Rare Facultative Anaerobe Causing Emphysematous Osteomyelitis of the Pubic Bone. *Cureus* 14(7): e26575. DOI 10.7759/cureus.26575
7. Kim YK et al. Rapidly Fatal Emphysematous Osteomyelitis with Multiple Septic Emboli and Liver Abscess Caused by *Klebsiella pneumoniae*. *Infect Chemother*. 2018 Sep; 50(3):268-273. <https://doi.org/10.3947/ic.2018.50.3.268>
8. Gruenberg KM, Halgas BJ, Lundy J. Emphysematous osteomyelitis of the calcaneus: a case report and review. *Int J Burn Trauma* 2022; 12(4):185-187
9. Khanduri S, Singh M, Goyal A, Singh S. Emphysematous osteomyelitis: Report of two cases and review of literature. *Indian J Radiol Imaging* 2018;28:78-80.
10. Lee D, Mohile N, Rakoczy K, Gjolaj JP. Emphysematous osteomyelitis of the spine: a case report and case based review of the literature. *J Spine Surg* 2022; 8(3):362-376 <https://dx.doi.org/10.21037/jss-22-6>.
11. Sung S, Lee BH, Kim JH, Park Y, Ha JW, Moon SH, Lee HM, Kwon JW. Emphysematous osteomyelitis of the spine: A rare case report. *Medicine* 2020; 99:28(e21113).
12. Abdelbaki A. Emphysematous osteomyelitis of the forefoot. *Baylor University Medical Center (BAYL UNIV MED CENT)* 2018; 31(1):100–101. <https://doi.org/10.1080/08998280.2017.1390338>
13. Sachdev I, Tomer N, Bethapudi S, et al. A Rare Case of Emphysematous Osteomyelitis of Femur in an Intravenous Drug User. *Cureus* 13(7): e16782. DOI 10.7759/cureus.16782
14. Small JE, Chea P, Shah N, Small KM. Diagnostic features of emphysematous osteomyelitis. *Curr Probl Diagn Radiol* 2018;01 Jun 2018. doi: [https:// doi. org/ 10.1067/](https://doi.org/10.1067/)



15. Bhattarai V et al. Radiologic finding of intraosseous gas: A rare case of emphysematous osteomyelitis of the foot. *Radiology Case Reports*, 2023; 18:643-646
16. Di Stasi M, Pontillo G, Bartolini A, Elefante A, Muccio CF. Spontaneous emphysematous osteomyelitis of the spine: A case report. *Radiology Case Reports*, 2020; 15:1552–1554. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2020.05.078>