

## NECROSIS LINGUAL COMO FORMA DE PRESENTACIÓN DE ARTERITIS TEMPORAL

M. LUCÍA VÁZQUEZ PIANZOLA<sup>1</sup>, WANDA BANFI<sup>1</sup>, ADRIÁN LABORDE<sup>2</sup>, RAFAEL GARCÍA PELLEGRINO<sup>3</sup><sup>1</sup>*Clinica Médica*, <sup>2</sup>*Unidad de Terapia Intensiva*, <sup>3</sup>*Cirugía Vasculat, Clínica Hispano Argentina de Tres Arroyos, Provincia de Buenos Aires, Argentina*

**Resumen** La arteritis de células gigantes es una vasculitis sistémica que compromete arterias de mediano y gran calibre, principalmente la arteria aorta y sus ramas. Su prevalencia es mayor en mujeres a partir de los 50 años, típicamente se manifiesta con fiebre, claudicación mandibular, cefalea, hiperestesia del cuero cabelludo y pérdida de la visión con neuropatía óptica isquémica anterior, en una minoría de casos aparecen síntomas menos frecuentes que dificultan y retrasan el diagnóstico. Se presenta el caso de una mujer de 76 años que consultó por dolor en la cavidad bucal con edema lingual y en cuello de 48 horas de evolución asociado a cefalea el mes previo. En el examen físico presentaba signos clínicos de isquemia lingual, por lo que se consideró como diagnóstico presuntivo compromiso isquémico por arteritis de células gigantes, e inició tratamiento con corticoides sistémicos realizándose una biopsia de arteria temporal que evidenció infiltrado linfocitario panparietal con engrosamiento de la túnica íntima y hallazgos compatibles con panarteritis. La arteritis de células gigantes debe ser sospechada en pacientes con manifestaciones de isquemia lingual, iniciándose en forma precoz el tratamiento para evitar complicaciones irreversibles.

**Palabras clave:** glosodinia, arteritis de células gigantes, arteritis temporal

**Abstract** *Lingual necrosis as a form of presentation of temporary arteritis.* Giant cell arteritis is a systemic vasculitis that affects arteries of medium and large caliber, mainly the aorta artery and its main branches. It is more frequent in women older than 50 years. The most common symptoms are fever, jaw claudication, headache, hyperesthesia of the scalp and loss of vision with anterior ischemic optic nerve disease. But, in a minority of cases, less frequent symptoms are observed that delay and make more difficult the diagnosis. Here, we present the case of a 76-year-old woman who came to our consultation having pain in the oral cavity and presenting tongue and neck edema for 48 hours. She had also suffered from headaches during the previous month. Because the physical examination showed clinical signs of lingual ischemia, a presumptive diagnosis of ischemic involvement due to giant cell arteritis was considered. She started a treatment with systemic corticosteroids and a temporal artery biopsy was performed. We conclude, that giant cell arteritis should be suspected in patients presenting lingual ischemia symptoms in order to start the specific treatment early enough to avoid irreversible complications.

**Key words:** glossodynia, giant cell arteritis, temporal arteritis

La arteritis de células gigantes es la vasculitis más frecuente en adultos siendo más común en mujeres, con una edad media de presentación de 75 años<sup>1</sup>. Es una enfermedad sistémica de etiología desconocida que compromete los vasos de mediano y gran tamaño predominantemente a nivel de la cabeza y del cuello<sup>2-5</sup>. La

fisiopatología consiste en un proceso de inflamación de las paredes de los vasos, que ocasiona oclusión arterial e isquemia. La forma típica de presentación consiste en fiebre, claudicación mandibular, y en algunos pacientes pérdida de la visión<sup>4, 5</sup>. El diagnóstico y el inicio del tratamiento inmunosupresor en forma precoz son la clave para disminuir la morbimortalidad ocasionada por esta enfermedad<sup>1</sup>.

Recibido: 31-V-2019

Aceptado: 31-VII-2019

Dirección postal: M. Lucía Vázquez Pianzola, Dorrego 296, 7500 Tres Arroyos, Provincia de Buenos Aires, Argentina  
e-mail: luchivazq@hotmail.com

### Caso clínico

Se presenta el caso de una paciente de 76 años de edad con antecedentes de dislipemia, obesidad, fumadora hasta los 40

años (20 paquetes año), hipertensión arterial, sedentarismo, tratada en forma diaria con simvastatina 20 mg por día, furosemida 40 mg por día y alprazolam 1 mg por la noche. Consultó en nuestra institución por dolor en la cavidad bucal a predominio de la lengua y piso de la boca, dificultad para tragar con sialorrea y dificultad para articular la palabra, edema y dolor en cuello y cefalea. La cefalea había comenzado el mes previo y su intensidad se había ido incrementando, extendiéndose al cuello y la boca en los últimos días. Por la cefalea y el dolor cervical había estado internada en otra institución donde los síntomas fueron interpretados como secundarios a una "neuralgia" según refería su familia, recibió antiinflamatorios no esteroideos, opioides y pregabalina sin mejoría de los síntomas.

Al momento de la primera evaluación clínica se encontraba con frecuencia cardíaca de 94 latidos por minuto, presión arterial 130/80 mmHg, eupneica, con saturación de oxígeno 96% respirando aire ambiental, sin fiebre. En el examen respiratorio, abdominal y cardiovascular no se encontraron alteraciones significativas, el examen neurológico era normal, no presentaba signos meníngeos, déficits motores ni sensitivos. En la cavidad bucal, la lengua se encontraba aumentada de tamaño, con cambios de la coloración de la mucosa, en especial la izquierda donde presentaba un área azulada, sobre el resto de la lengua una membrana blanquecina; el dolor estaba

localizado sobre todo en el sector anterior izquierdo y en el piso de la boca lo que dificultaba el examen de la motilidad (Fig. 1). Las fauces estaban congestivas. No presentaba soplos carotídeos, los pulsos carotídeos estaban presentes y eran simétricos; los pulsos de las arterias temporales estaban presentes e impresionaban disminuidos en su intensidad.

En la analítica de ingreso se obtuvieron los siguientes resultados: hematocrito 36% hemoglobina 11.4 g/dl, volumen corpuscular medio 83.3 f/l, RDW 13, eritrosedimentación 105, proteína C reactiva (PCR) 120 mg/l, glóbulos blancos: 15 700/mm<sup>3</sup> (neutrófilos segmentados 60, cayado 2, eosinófilos 3, basófilos 0, linfocitos 3, monocitos 4) recuento de plaquetas 455 000/mm<sup>3</sup>, urea 31md/dl, creatinina 8 md/l, sodio 135 meq/l, potasio 3.7meq/l, cloro 98 meq/l, TGP 38U/L, TGO 39 U/L, FAL 170 UI/L, BT 0.45 mg/dl.

Se plantearon como diagnósticos diferenciales: compromiso de la irrigación arterial o venosa a nivel lingual por un proceso isquémico o trombótico, y como principal sospecha clínica una vasculitis, dentro de este grupo se pensó en la posibilidad de una vasculitis de células gigantes (arteritis temporal) por la edad de la paciente, la cefalea previa, el probable compromiso en cabeza y cuello, y el aumento de los marcadores de inflamación (ESR, PCR), como alternativa menos probable la presencia de procesos tumorales o infecciosos a nivel de la cavidad bucal.

Fig. 1.- Examen al ingreso, coloración azulada de la punta de la lengua con membrana blanquecina cubriendo el resto de la mucosa



Se realizó una radiografía de tórax que fue normal, un electrocardiograma sin hallazgos relevantes, TAC de cabeza, cuello y macizo facial con contraste endovenoso en donde no se identificaron procesos ocupantes ni abscesos. Se realizó un Doppler de vasos de cuello donde no se identificaron lesiones vasculares. Fue ingresada en unidad de terapia intensiva para monitoreo de la vía aérea, y titulación de analgesia con opioides (fentanilo). Luego de los primeros estudios complementarios y ante la sospecha clínica de arteritis de la temporal con compromiso de arterias linguales e isquemia se decidió iniciar tratamiento con pulsos de esteroides (metilprednisolona 1 gramo por día durante 3 días) seguidos de meprednisona 80 mg/día y se solicitó la realización de una biopsia de arteria temporal. Presentó mejoría paulatina del dolor y del edema lingual, disminuyendo la sialorrea, mejorando la dificultad para tragar y para articular la palabra; la zona de isquemia se limitó al sector anterior de la lengua dando lugar a la formación de una membrana grisácea sobre una úlcera con fondo vital (Fig. 2). Luego de recibir pulsos con metilprednisolona y en tratamiento con corticoides orales se le realizó una biopsia de arteria temporal izquierda que evidenció infiltrado linfocitario panparietal con engrosamiento de la túnica íntima y hallazgos compatibles con panarteritis.

Se realizaron además otros estudios complementarios de laboratorio: anticuerpos anti núcleo menor de 1/40 (método inmunofluorescencia sustrato HEP 2), factor reumatoideo, ANCA p y c negativos, complemento total y fracciones c3, c4 dentro de límites normales.

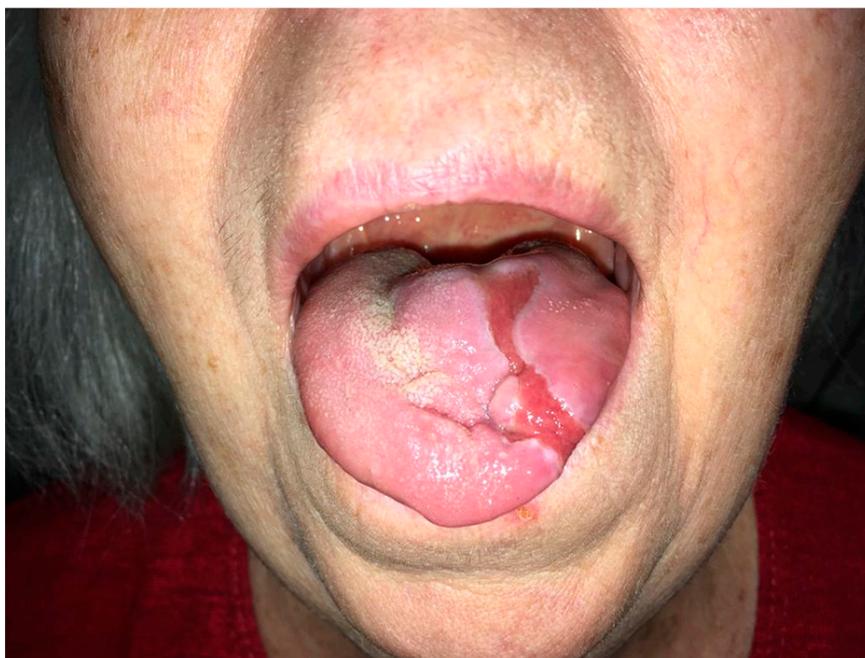
Se titularon los opioides en dosis decrecientes y fue externada con tratamiento con meprednisona oral 80 mg/día (1 mg/kg/día).

## Discusión

Las comunicaciones sobre arteritis de células gigantes que se presentan con afección y lesiones linguales son infrecuentes dado que la necrosis de la lengua es de por sí una afección rara, ya que la vascularización de la misma está dada por múltiples colaterales<sup>2, 3, 7</sup> aportadas por la arterial lingual, la arteria facial y la arteria faríngea<sup>1, 5, 7</sup>.

Los diagnósticos diferenciales de la isquemia lingual incluyen: las vasculitis (siendo ésta la causa más frecuente<sup>2</sup>), los eventos trombóticos como el síndrome antifos-

Fig. 2.- Examen en un control ambulatorio de la paciente, se evidencia la lesión lingual en vías de resolución.



folípido, la glositis necrotizante, el trauma, el cáncer, la radiación<sup>1-3</sup>, las drogas erogotamínicas y el *shock* con uso de vasopresores<sup>3</sup>.

Nuestra paciente, como otros casos presentados en la literatura, tenía glosodinia con edema de lengua con cambio en la coloración de la mucosa lingual, disartria y dificultad para tragar, precedida en los días previos por cefalea que había sido atribuida a otra causa. La lesión lingual progresó rápidamente hacia una úlcera con necrosis que se limitó probablemente, por el inicio precoz y empírico de tratamiento con corticoides sistémicos como lo sugiere la bibliografía<sup>5</sup>.

Luego de realizar una revisión de la bibliografía y del caso de nuestra paciente podemos decir que la arteritis de células gigantes debe ser sospechada en quienes se presentan con síntomas como edema, dolor y signos de isquemia a nivel lingual sin una causa evidente. Ante la sospecha clínica, el tratamiento inmunosupresor debe ser instaurado en forma precoz para evitar complicaciones irreversibles<sup>4, 5</sup>.

**Conflicto de intereses:** Ninguno para declarar

## Bibliografía

1. Cockey G, Shah SR, Hampton T. Giant cell arteritis presenting with a tongue lesion-diagnostic dilemma. *Am J Med* 2019; 132: 576-8.
2. Kumarasinghe AP, Hepburn A, Reuther WJ, Pratt C. Temporal arteritis presenting with tongue necrosis. *BMJ Case Re.* 2012; pii: bcr2012007241.
3. McGoldrick DM, Khan I, Cotter CJ. Ischaemic necrosis of the tongue. *BMJ Case Rep* 2015; pii: bcr2014208330.
4. Zaragoza J.R, Vernon N, Ghaffari G. Tongue necrosis as an initial manifestation of giant cell arteritis: case report and review of de literature. *Case Rep Rheumatol* 2015; 2015: 901795.
5. Raveendran R, Banks S, Beck M, et al. On the tip of the tongue: tongue necrosis as the initial presentation of systemic vasculitis in adult and pediatric patients- case reports and a literature review. *J Fam Med Dis Prev* 2016; 2: 047.
6. Chana A. Sacks, Tongue necrosis in giant-cell arteritis. Images in clinical medicine. *N Engl J Med* 2018; 378: 26.
7. Bergan JJ. Ischemic necrosis of the tongue; a case report. *Q Bull Northwest Univ Med Sch* 1959; 33: 38-40.

- - - -

*The two offices of memory are collection and distribution; by one images are accumulated, and by the other produced for use. Collection is always the employment of our first years; and distribution commonly that of our advanced age.*

Las dos funciones de la memoria son colección y distribución, por una se acumulan imágenes y por la otra se producen para el uso. Coleccionar es siempre función de nuestros primeros años y la distribución comúnmente de nuestra edad avanzada.

Samuel Johnson (1709-1784)

The Idler. Nº 44. The use of memory considered. Saturday 17 Feb 1759. En: <http://www.johnsonessays.com/the-idler/use-memory-considered/>; 1-9-2019