

# Encefalitis y síndrome catatónico. Reporte de un caso clínico

<sup>1</sup> Dra. María Cristina Díaz Barba

<sup>2</sup> Dra. Mercedes Macías Parra

<sup>3</sup> Dra. Diana Molina Valdespino

<sup>4</sup> Dr. Pablo León Ortiz

I Pediatra Egresada del Instituto Nacional de Pediatría, INP.

2 Infectólogo Pediatra, Médico Adscrito al Departamento de Infectología del Instituto Nacional de Pediatría, INP.

3 Psiquiatra, Paidopsiquiatra y Médico Adscrito al Departamento de Salud Mental del Instituto Nacional de Pediatría, INP.

4 Psiquiatra del Instituto Nacional de Neurología y Neurocirugía, INNyN.

## Resumen

El estado catatónico es un síndrome psiquiátrico raro y grave que puede ser potencialmente fatal. Se define por la asociación de alteraciones motoras (estupor, excitación, rigidez, negativismo y movimientos esteriotipados) y síntomas psiquiátricos (mutismo, ecolalia, verborrea), y es más comúnmente asociado a enfermedades psiquiátricas; sin embargo, es fundamental descartar una enfermedad médica subyacente. El estado catatónico en el adolescente representa un reto clínico diagnóstico. Se describe el caso de un masculino de 16 años de edad con alteraciones de conducta seguidas de mutismo, espasticidad, fiebre e inestabilidad del sistema autónomo, por lo que se consideró la posibilidad de catatonía maligna. Los hallazgos en el líquido cefalorraquídeo fueron sugestivos de encefalitis probablemente viral. El paciente fue tratado con anticonvulsivantes, lorazepam y esteroides con evolución clínica satisfactoria.

Palabras clave: síndrome catatónico.

## Abstract

Catatonia is a rare and severe psychiatric syndrome that can be potentially fatal. Is defined by the association of motor impairment (stupor, agitation, rigidity, negativism and stereotypical movements) and psychiatric symptoms (mutism, echolalia and verbiage) is most commonly associated with psychiatry disorders; however it's important to rule out an underlying medical condition. The catatonic state in adolescent clinical diagnosis is a challenge. We describe the case of 16 years old male patient with behavioral changes followed by mutism, spasticity, fever, and autonomic instability, and therefore considered the possibility of malignant catatonic syndrome. The findings in the cerebrospinal fluid were suggestive of probably viral encephalitis. The patient was treated with anticonvulsants, lorazepam, and steroids with good evolution.

Keywords: catatonic syndrome.

## Introducción

El síndrome catatónico es una entidad rara en niños y adolescentes; su incidencia se estima en 0.10 por un millón en un año y la información existente en la literatura en población pediátrica se limita a un número reducido de reporte de casos.

Esta entidad fue descrita por primera vez en 1869 por Karl Ludwig Kahlbaum, y publicada en 1873. Originalmente incluía síntomas de tipo afectivo y conductual, pero con énfasis en hallazgos predominantemente motores, caracterizados por mutismo, negativismo, estereotipias, catalepsia o flexibilidad cérea y verbigeración, por lo que inicialmente fue incluida en patologías psiquiátricas

### \*Correspondencia:

M. en C. Mercedes Macías Parra

Dirección: Insurgentes Sur 3700-C, Col. Cuicuilco, Del. Coyoacán, C.P. 04530, México, D.F.

Correo electrónico: meparc@hotmail.com

—particularmente esquizofrenia—, sin embargo, la evaluación retrospectiva de varios casos catalogados como estado catatónico puso en evidencia que algunos de estos pacientes presentaban enfermedades subyacentes que correspondían a patologías no psiquiátricas,<sup>1,2</sup> lo que indujo al estudio de esta entidad con una perspectiva más amplia.

Recientemente, con el objetivo de simplificar su abordaje diagnóstico, esta entidad se ha caracterizado de acuerdo con la etiología subyacente (infecciosa, metabólica, neurológica, endocrina, tóxica, psiquiátrica, reumática y médica).<sup>3</sup>

Se describe el caso de un paciente con encefalitis viral y estado catatónico con recuperación *ad integrum*, con la finalidad de alertar al médico sobre esta entidad y de la importancia de realizar en forma temprana el diagnóstico para un manejo adecuado, debido a que en algunos casos la catatonía puede tener un desenlace fatal.

## Descripción del caso

Masculino de 16 años de edad procedente de la Ciudad de México, presenta 13 días previos a su ingreso un cuadro de vías respiratorias superiores caracterizado por rinorrea, tos, fiebre y mal estado general, por lo cual recibe manejo sintomático con lo que el cuadro cede a los cinco días. Permanece asintomático por siete días, después, presenta cefalea universal, incapacitante, acompañada de un vómito, que cede un día después con la administración de analgésico. Cursa asintomático por cinco días posterior a los cuales presenta cambios conductuales caracterizados por períodos de mutismo, alternantes con risas inmotivadas, irritabilidad, autoagresividad y actitud suspicaz, negativismo, mirada perpleja, somnolencia, automatismos y conductas perseverantes, por lo que es llevado a un hospital pediátrico en donde lo observan desorientado y con pupilas midriáticas; se sospecha intoxicación por estupefacientes, por lo que se solicita perfil toxicológico, el cual es positivo a alcohol (a niveles no tóxicos) y negativo a cannabis; no se investigan otras drogas. Se egresa a las 24 horas con diagnóstico de intoxicación alcohólica. Debido a la persistencia de los síntomas previamente mencionados, al día siguiente acude nuevamente a consulta, en donde se observa conducta alucinatoria, por lo que se mantiene en observación durante 24 horas y es egresado con el mismo diagnóstico. Dos días después acude a un hospital psiquiátrico, en

donde se reportan signos vitales estables, Glasgow de 13, con fluctuación del estado de alerta y pobre contacto visual, orientado en persona, no así en tiempo, lugar y espacio. Discurso parco, disgregado, juicio fuera de la realidad, con actitud de "alucinado" y sin conciencia de enfermedad. Durante la entrevista presenta cinco vómitos de contenido gastro-alimentario, por lo que es dado de alta para canalización a hospital pediátrico con diagnóstico probable de *delirium* de origen a determinar. Por progresión de las manifestaciones clínicas, el paciente es llevado en su tercer día de evolución al Instituto Nacional de Pediatría (INP).

Se le observa somnoliento, Glasgow de 14, desorientado en tiempo y lugar, mutismo selectivo (contesta a todas las preguntas "no sé" o "no me acuerdo"), manteniendo contacto visual. A la exploración física presenta: peso 55 Kg (5-25%), talla 170 cm (25%), temperatura 36.5 °C, frecuencia cardiaca 73/min, frecuencia respiratoria 23/min, tensión arterial 100/70 mm Hg; pupilas isocóricas y normorreflécticas, fondo de ojo normal, reflejos osteotendinosos incrementados, discreta dismetría, el resto de la exploración sin alteraciones. Se considera la posibilidad de encefalitis, por lo que se realiza biometría hemática, la cual reporta: hemoglobina 16.3 g/100mL (13.6-17.2), hematocrito 47% (39.5-50.3), leucocitos 6.9 103/uL (4.3-10.3), neutrófilos 78% (41-73), linfocitos 18% (19-44), monocitos 4% (0-10.9) y plaquetas 202 103/uL (156-373). En el análisis de líquido cefalorraquídeo (LCR), se muestra una presión de apertura de 14.5 cm H2O, aspecto de agua de roca, sin película, microproteínas 41 mg, células 41/mm<sup>3</sup>, 100% de mononucleares, glucosa 62 mg/dL, glucosa central 110 mg/dL, sodio 138 mmol/L, potasio 3.7 mmol/L, cloro 110 mmol/L, calcio 9.7 mEq/L, glucosa 110 mg/dL, urea 33 mg/dL, BUN 15.8 mg/dL y creatinina 0.71 mg/dL. La tomografía axial computarizada de cráneo (TAC) resulta normal. Se inicia manejo con dexametasona 0.25mg/Kg/día (se administra dosis máxima de 16 mg al día).

En las primeras 24 horas de ingreso, el paciente presenta deterioro de estado neurológico, despertando únicamente ante el estímulo doloroso, su lenguaje se torna incoherente alternando con períodos de mutismo e imposibilidad para la alimentación. Se plantea la posibilidad de encefalitis por herpes simple, por lo que se inicia manejo con aciclovir 15 mg/Kg, cada ocho horas por 15 días y se coloca sonda transpilórica para la alimentación.

Al tercer día de internamiento, presenta mayor deterioro del estado de alerta con respuesta única-

mente a estímulos dolorosos, oftalmoplegía, ecolalia, mutismo aquinético alternando con movimientos orolinguales y rigidez, paratonías en miembros pélvicos (signo de Gegenhalten). Se realiza nueva punción lumbar, en la cual se reporta LCR sin película, aspecto de agua de roca, microproteínas 30 mg, glucosa 57 mg/dL, glucosa central 102 mg/dL, células 8 mm<sup>3</sup>, eritrocitos 6 y leucocitos 2. Es valorado por el servicio de psiquiatría, quienes consideran que cumple criterios para síndrome catatónico, inician lorazepam y se continúa dexametasona por 10 días.

Durante su estancia, el paciente cursó con períodos de agitación alternando con lapsos de letargia, bradicardia de hasta 42 pulsaciones por minuto sin repercusión hemodinámica e hipertensión arterial sistémica (145/100 mm Hg). Los síntomas se atribuyeron a respuesta neurovegetativa secundaria al síndrome catatónico, por lo que se inició manejo con inhibidores de enzima convertidora de angiotensina.

Se realizó determinación de antígenos en LCR por técnica de inmunofluorescencia para herpes virus 6 y reacción en cadena de la polimerasa (PCR) para la detección de herpes virus tipo 1 y 2 (HSV) y panenterovirus, pruebas que resultaron negativas.

El resultado del perfil toxicológico para cannabinoides, cocaína, benzodiacepinas, barbitúricos, anfetaminas y opiáceos, etanol y metanol realizado a los nueve días de inicio del padecimiento actual fue negativo.

Como parte del abordaje del estado catatónico se realizaron los siguientes estudios de laboratorio y gabinete para descartar causas metabólicas, hormonales, inmunológicas e infecciosas, los cuales se reportaron dentro de parámetros normales. Se realizó determinación de: C3 138 mg/dL (55-128), C4 24.2 mg/dL (19-58), IgG 1,030 mg/dL (613-1295), IgM 158 mg/dL (53-334), IgA 367 mg/dL (69-308), T3T 62.6 ng/dL (82-179), T4T 9.73 ng/dL (4.5-12.5), TSH 0.49 µU/mL (0.4-4.1), T3L 2.31 ng/dL (1.5-4), T4L 1.9 ng/dL (0.8-1.9), AST 28 U/L ( $\leq$ 40), ALT 17 U/L ( $\leq$ 40), GGT 19 U/L (7-51), FA 80 U/L (44-147) amonio 19 µg/dL.

La resonancia magnética realizada en el tercer día de internamiento se reportó normal. El electroencefalograma (EEG) realizado al quinto día de estancia mostró lentificación generalizada y paroxismos con focos independientes. Posterior al estudio, el paciente presentó una crisis convulsiva tónico clónico generalizada de un minuto de duración, la cual se yugula con diazepam, y se im-

pregna con ácido valproico por neurología. Una semana más tarde, se repite EEG, el cual continuó mostrando focos epileptógenos, por lo cual se decide agregar al manejo difenilhidantoína a pesar de que el paciente no había presentado nuevas crisis clínicamente.

En su estancia de 29 días, persistió en estado catatónico, con una pérdida de peso de aproximadamente 10 Kg a pesar de la alimentación por sonda transpílorica. Ante la falta de respuesta al tratamiento convencional y el rápido deterioro del paciente, se decide su transferencia al Instituto Nacional de Neurología y Neurocirugía (INNyN) con el fin de evaluar terapia electroconvulsiva (TEC).

Durante su internamiento en el INNyN, presentó picos febriles que impidieron se realizara la TEC, por lo que se continuó con manejo farmacológico. Se suspendió manejo con ácido valproico y difenilhidantoína y se inicia carbamacepina a dosis de 200 mg cada ocho horas. El paciente no volvió a presentar crisis convulsivas y se reportó en las notas de evolución la recuperación gradual de sus habilidades, así como una recuperación inicial en el control de esfínteres y, posteriormente, de la comunicación verbal, en un inicio coprolálica y con conducta de heteroagresividad, continuando con fallas de memoria a corto plazo. El paciente toleró la alimentación en forma independiente y la marcha con apoyo. Ante la capacidad de comunicarse y la ausencia de conducta psicótica, se egresa con manejo con base en carbamacepina y fluoxetina, así como terapia de rehabilitación. Se da seguimiento a través de la consulta externa y, al cuarto mes posterior a su egreso, el paciente se reporta con remisión completa del cuadro base, permaneciendo únicamente con fallas en la memoria, sin recordar ninguna etapa de su enfermedad.

## Discusión

El estado catatónico en pediatría se reporta esporádicamente, sin embargo, es posible que esta entidad esté subdiagnosticada debido al escaso conocimiento del síndrome.<sup>4</sup> Si bien la información es limitada, en el campo de la psiquiatría pediátrica se reporta una prevalencia de estado catatónico de 0.6 a 17% (Thakur y cols. 2003, Cohen y cols. 2005), lo que contrasta con una mayor frecuencia reportada en población adulta que oscila entre 7.6% y 38%.<sup>5,6</sup>

En la actualidad, la catatonia sigue siendo un reto diagnóstico terapéutico para el clínico. En la literatura se enumeran algunos criterios diagnósticos y es necesaria la presencia de al menos uno de ellos para considerar el diagnóstico de enfermedad catatónica, éstos incluyen: excitación (movimientos sin sentido o actividad motora excesiva), inmovilidad motora, negativismo extremo, mutismo, manerismos o estereotipias, ecolalia, ecopraxia y evidencia en la historia clínica, examen físico o estudios de laboratorio de una enfermedad que pueda estar etiológicamente relacionada con el estado catatónico.<sup>7,8</sup> Nuestro paciente reunía los criterios establecidos para el diagnóstico de estado catatónico, ya que presentaba mutismo, negativismo, mirada fija, estereotipias, lo que condicionó que se estableciera de forma inicial el diagnóstico de delirium secundario a ingestión de tóxicos a descartar patología psiquiátrica.

La combinación de dos o más de estas manifestaciones como psicosis, manía, delirium, estado catatónico, agitación psicomotriz exagerada, insomnio y comportamiento combativo pueden condicionar desgaste excesivo que puede llegar a la muerte en algunos casos. En nuestro paciente, la pérdida de peso de 10 Kg durante los 29 días de su estancia, si bien estuvo condicionada por una alimentación irregular, correspondió a una agitación psicomotriz persistente que pudo haber contribuido a este desgaste. Desafortunadamente, no se realizó la determinación de creatinfosfoquinasa que se encuentra elevada en el síndrome de desgaste por agitación exagerada.

El LCR inicial mostró discreta pleocitosis, lo que puede estar en relación con la presencia de una encefalitis viral, como probable causa del estado catatónico. La asociación de catatonia con encefalitis se ha llamado históricamente encefalitis letárgica (EL) y se divide en tres formas: somnolenta oftalmoplégica, hiperquinética y parkinsoniana o aquinética. El tercer tipo asemeja el estado catatónico.<sup>9</sup>

Susuki y cols. han reportado que el EEG es indispensable en los casos de catatonia y estupor, ya que se puede identificar un estado epiléptico en etapa temprana.<sup>10</sup> En el caso de nuestro paciente, el EEG mostró la presencia de descargas paroxísticas, sin evidencia clínica de crisis convulsivas, probablemente enmascaradas por el estado catatónico.<sup>9,10</sup> Primavera y cols. en una serie de casos de pacientes en estado catatónico encontraron que 13.8% de los pacientes presentaron crisis convulsivas, mayor a la incidencia reportada en la población general, por lo que se ha sugerido

la presencia de una posible asociación entre las dos entidades.<sup>9</sup>

El paciente presentó otras manifestaciones adicionales como hipertermia, alteraciones del sistema autónomo y espasticidad, que se han descrito en la catatonia maligna, la cual responde al tratamiento con antiepilepticos sedantes (barbitúricos y benzodiacepinas). La terapia electroconvulsiva ha evidenciado ser útil en adultos para revertir el estado catatónico, lo que requiere de una evaluación muy cuidadosa.<sup>7</sup> En este caso la resonancia fue normal, mientras que en la literatura se reporta alteraciones sólo en 40% de los casos con localización variable de las lesiones, siendo las más frecuentes los ganglios basales (incluida la substancia negra), el tálamo, pedúnculo cerebral y la corteza temporal. Se han realizado en algunos casos tomografías con emisión de positrones, en las cuales se ha demostrado un metabolismo de glucosa incrementado en los ganglios basales.<sup>8,11,12</sup>

Se desconoce la fisiopatogenia del estado catatónico, sin embargo, se ha sugerido una alteración en los transmisores GABAérgicos en la corteza premotora y motora órbito frontal, lo que justificaría el aparente beneficio de los potenciadores de GABA-A, como el lorazepam. También se ha sugerido que la catatonia puede ser el resultado de un estado de hiperactividad de los receptores del glutamato y, en este caso, los inhibidores del glutamato podrían ser una opción.<sup>13</sup>

No existen estudios controlados que hayan evaluado las diferentes opciones terapéuticas, sin embargo, se ha reportado en forma consistente que las benzodiacepinas, la terapia electroconvulsiva y los antipsicóticos pueden ser de utilidad. Nuestro paciente recibió manejo con lorazepam y esteroides, por lo que no fueron necesarias otras intervenciones, sin embargo, debido a la presencia de alteraciones autonómicas y fiebre se planteó la posibilidad de catatonia maligna, por lo que el paciente se había programado para recibir terapia electroconvulsiva.

En este paciente se utilizaron esteroides en etapas tempranas, algunos autores han apoyado el manejo con éstos y terapia inmunomoduladora por el mecanismo inmunológico que se cree está involucrado en el desarrollo de esta enfermedad, sin embargo, se requiere mayor investigación al respecto.<sup>13-15</sup> Se recomienda la terapia de soporte, tanto de las manifestaciones cardiorrespiratorias como de las extrapiramidales y neuropsiquiátricas.

## Conclusiones

El síndrome catatónico es un padecimiento poco frecuente y, probablemente, subdiagnosticado, debido a la gran variedad de manifestaciones clínicas. El diagnóstico debe considerarse en pacientes con síntomas neuropsiquiátricos que involucran la pér-

dida de funciones motoras y contacto con el medio ambiente, ya que el estado catatónico en niños y adolescentes se ha relacionado en su mayoría a enfermedades orgánicas; se debe de realizar un abordaje extenso para descartar las etiologías más frecuentes con el fin de tratar la causa y evitar un desenlace fatal.

### Referencias

1. Romero-Tapia AE, Escobar Córdoba F. Algoritmo para el diagnóstico diferencial de catatonía en emergencias médicas. *Investigación en Salud* 2006;VIII:112-7.
2. Zisselman MH, Jaffe RL. ECT in the treatment of a patient with catatonia: consent and complications. *Am J Psychiatry* 2010;167:127-32.
3. Fink M, Taylor M. Catatonia, a clinician's guide to diagnosis and treatment. *Catatonia, a history*. Ed. Cambridge University Press Is ted. 2003. p. 1-16.
4. Dhossche D, Shettar S, Kumar T, Burt L. Electroconvulsive therapy for malignant catatonia in adolescence. *South Med J* 2009;102(11):1171-2.
5. Lahutte N, Cornic F, Bonnot O, Consoli A. Multidisciplinary approach of organic catatonia in children and adolescents may improve treatment decision-making. *Prog Neuro-Psychopharmacol Biol Psychiatry* 2008;32:1398.
6. Primavera A, Fonti A, Novello P, Roccatagliati G, Cocito L. Epileptic seizures in patients with acute catatonic syndrome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1994;57:1419-22.
7. Ono Y, Manabe Y. Steroid-responsive encephalitis lethargic syndrome with malignant catatonia. *Intern Med* 2006;46:6179.
8. Johnson J. Encephalitis lethargic a contemporary cause of catatonic stupor, a report of two cases. *British J of Psychiatr* 1987;161:551-2.
9. Sahaya K, Lardizabal D. Catatonia in encephalitis and non-convulsive seizures: a case report and review of the literature. *Epilepsy & Behavior* 2010;17:420-5.
10. Suzuki K, Miura N, Awata S, Ebina Y, Takano T, et al. Epileptic seizures superimposed on catatonic stupor. *Epilepsia* 2006;47:793-8.
11. Lopez-Alberola R, Georgiou M, Sfakianakis GN, Singer C, et al. Contemporary encephalitis lethargic: phenotype, laboratory findings and treatment outcomes. *J Neurol* 2009;256:396-404.
12. Ngai L K, Yian S Y, Lee SH, Tija H. Bilateral substantial nigra changes on MRI in patient with encephalitis lethargic. *Neurology* 1999;53:1860-62.
13. Mehta A, Carlton E, Franco K. Catatonia in adolescence: a case report. *Psychiatry* 2008;5(4):37-41.
14. Johnson J. Encephalitis lethargic a contemporary cause of catatonic stupor, a report of two cases. *British J Psychiatr* 1987;161:551-2.
15. Freudenberg O, McEvoy JP, Goff DL, Fricchione GL. Catatonic coma with profound bradycardia. *Psychosomatics* 2007;48:74-8.