

Università degli Studi di Udine
Clinica Neurologica
direttore prof. Paolo Bergonzi

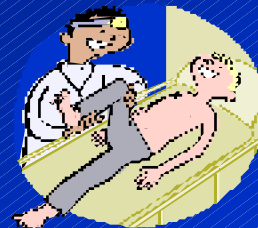
Un caso inusuale di dolore neuropatico?

L. Cecotti, C. Marchini, S. Zanini e P. Bergonzi

Pordenone, 21 novembre 2003

Anamnesi ed esame neurologico

- pz **maschio** di **64 aa**
- anamnesi familiare e fisiologica negative
- anamnesi patologica remota: 8 aa prima safenectomia a sn, 5 aa prima borsite ginocchio dx, da 7 mesi in tx anti-ipertensiva (sartanico)
- anamnesi patologica prossima: comparsa a **novembre '02** di **dolori a insorgenza violenta e acuta** (simili a "tic doloreaux" del trigemino) al **terzo medio della gamba destra** – sia medialmente sia lateralmente - **a barra**, con un'altezza di circa 15 cm, della **durata di circa 10 secondi** e a risoluzione improvvisa spontanea. Le crisi di ripetevano **fino a 10 vv al giorno**, a volte comparivano di notte risvegliandolo. Resistente a tx con antidolorifici (inibitori COX2) e miorilassanti (tiocolchicoside)
- Rx gamba dx, ECO osteoarticolare, RM polpaccio dx (nov. '02): negative
- esame neurologico: modesta ipovalidità riflessi profondi e ipopallestesia distale AII.



Area del dolore



- dolori al 1/3 medio gamba dx, a barra
- fino a 10 vv/die
- durata ~ 10 sec



Neurol Sci.2001 Jun;22(3):271-3.

Reversible central pain.

Canavero S, Bonicalzi V.

Pain Relief Unit, Department of Neurosciences, Molinette Hospital, Via Montemagno 46, I-10132 Turin, Italy.

We report two cases of central pain which receded completely after treatment of the inciting lesion. These cases highlight the intrinsic reversibility of central pain and the focal nature of central pain mechanisms.

Case report 2

In the summer of 1999, a 45-year-old woman started to complain of pain in the left leg. The pain was pulling, deep, never burning, and intermittent. Every day, she complained of 4-5 episodes (but this varied on each day), each of which lasted about 10 seconds. In September 1999, she suddenly lost consciousness. Upon awakening she was drowsy and confused, and vomited. Brain CT showed diffuse subarachnoid hemorrhage. Four-vessel brain angiography disclosed a bleeding berry aneurysm at the junction of the left vertebral artery and posteroinferior cerebellar artery. A second non-bleeding

aneurysm involved the anterior communicating artery. The former aneurysm was completely occluded with Guglielmi detachable coils through a standard transfemoral artery approach.

The patient made a full recovery. Afterwards, the pain suddenly stopped. Neurologically, there was pinprick plus slight tactile hypaesthesia in the lateral aspect of her left thigh and leg (bar foot and ankle). Two months later the patient remains free of pain. Brain MRI and CT 3 weeks after hemorrhage were normal (Fig. 2), but there was signal alteration at the level of the medulla.

Discussion

Contrary to common opinion, central pain can, on occasion, be relieved by surgical treatment of the inciting lesion (pari-

cal meningiomas and traumatic contusions [5, 9], parietal glioma [10], parietal angioma [7], parietal infarct [4], internal carotid aneurysm [8] and spinal cyst [6] embolization of a brain angioma [3].

The present case 1 is similar to our previous report [6]. Both patients had a history suggestive of discal pathology, but close examination and questioning disclosed typical central pain. The diagnosis was clinched by a positive propofol test, a marker for central, but not neuropathic, pain [11]. Morphine too was ineffective, another typical feature of central pain [9].

Patient 2 had some similarities with another reported case [8]. In our case, the ipsilateral sensory deficits – spinothalamic and lemniscal – can be explained with compression of the gracile-cuneate complex before decussation and an ipsilateral spinothalamic projection, a not so rare occurrence [12]. Embolization could have relieved the pain by blocking the water-hammer effect of the inflowing aneurysmal blood. The abnormal area at MRI may be due to mechanical damage following hemorrhage. The possibility that it was this lesion which silenced CP is at odds with the fact that CP is usually not relieved by brainstem tractotomies [9].

Intermittent or paroxysmal pain is one well-known feature of CP [9, 10, 13].

In both these cases and others reported in the literature, compression of the spinothalamic pathway may have triggered the pain by altering glutamate-GABA neurotransmission at the thalamoparietal levels [14]. In predisposed individuals, compression of the spinothalamic pathway may be enough to trigger the CP cascade without irreversible anatomical disruption. This is confirmed by full reversibility of brain metabolic anomalies following disappearance of pain [2, 6].

All these reports make a strong case for CP being due to functional and reversible mechanisms [15].

Sommario Si descrivono due casi di dolore centrale totalmente regrediti in seguito al trattamento delle lesioni associate. Questi casi sottolineano la reversibilità intrinseca del dolore centrale e la natura focale dei meccanismi alla base del dolore centrale.

References

- Canavero S (1994) Dynamic reverberation. A unified mechanism for central and phantom pain. *Med Hypotheses* 42:203–207
- Canavero S, Bonicalzi V, De Lucchi R, Davini O, Podio V, Bisi G (1996) Abolition of neurogenic pain by focal cortical ischemia. *Clin J Pain* 14:268–269
- Fukuhara T, McKhann GM II, Santiago P, Eskridge JM, Loser JD, Wira HR (1999) Resolution of central pain after embolization of an arteriovenous malformation. Case report. *J Neurosurg* 90:575–579
- Hamby WB (1961) Reversible central pain. *Arch Neurol* 5:528–532
- Michelsen JJ (1934) Subjective disturbances of the sense of pain from lesion of the central cortex. *Assoc Res Mem Dis Proc* 23:86–99
- Pagni CA, Canavero S (1995) Functional thalamic depression in a case of reversible central pain due to a spinal intramedullary cyst. Case report. *J Neurosurg* 83:163–165
- Silver ML (1957) "Central pain" from cerebellar arteriovenous aneurysm. *J Neurosurg* 14:92–97
- Stoodley MA, Warren JD, Oatley PE (1995) Thalamic syndrome caused by unruptured cerebral aneurysm. Case report. *J Neurosurg* 82:291–293
- Tasker RR (2001) Central pain states. In: Loser JD (ed) *Bonica's management of pain*. Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, pp 433–457
- Protagas C, Avdelidis D, Singouras E et al (1997) Episodic pain associated with a tumor in the parietal operculum: a case report and literature review. *Pain* 72:201–208
- Canavero S, Bonicalzi V, Pagni CA et al (1995) Propofol analgesia in central pain: preliminary clinical observations. *J Neurol* 242:561–567
- Sweet WH, Poletti CE (1989) Operations in the brainstem and cord, with an appendix on open cordotomy. In: Wall PD, Melzack R (eds) *Textbook of pain*, 2nd edn. Churchill-Livingstone, pp 811–831
- Pagni CA, Canavero S (1993) Paroxysmal perineal pain resembling tic douloureux, only symptom of a dorsal meningioma. *Ital J Neurol Sci* 14:323–324
- Canavero S, Bonicalzi V (1998) Review article. The neurochemistry of central pain: evidence from clinical studies, hypothesis and therapeutic implications. *Pain* 74:109–114
- Canavero S, Bonicalzi V (1999) Resolution of central pain. *J Neurosurg* 91:715–716

Accertamenti eseguiti/1

- EMG (febb.'03): reperti suggestivi di possibile sofferenza a distribuzione metamerica L4-L5-S1 a dx (↓ **amp SAP peroneo superficiale e surale dx**).
- Rx rachide dorso-lombo-sacrale: lieve riduzione del trofismo calcareo; **quadro artrosico** con apposizioni osteofitosiche somatomarginali ant. e laterali diffuse; lieve ↓ altezza corpo L1.
- RM rachide dorso-lombo-sacrale (feb. '03): a livello L3-L4 modesta sporgenza discale post.; a livello L4-L5 sporgenza discale post. che si estrinseca medialmente e in sede laterale dx; a livello L5-S1 piccola ernia discale posteriore mediana.
- RM encefalo con mdc (sequenze SE, pesate in T1, T2 e DP sul piano assiale, acquisite inoltre sequenze GE 3D atte a ottenere *ricostruzioni simil-angiografiche*) (marzo '03): lieve maggiore ampiezza spazi subaracnoidei periencefalici a sede frontale bilateralmente, non alterazioni di morfologia, decorso e calibro dei principali rami arteriosi intracranici.



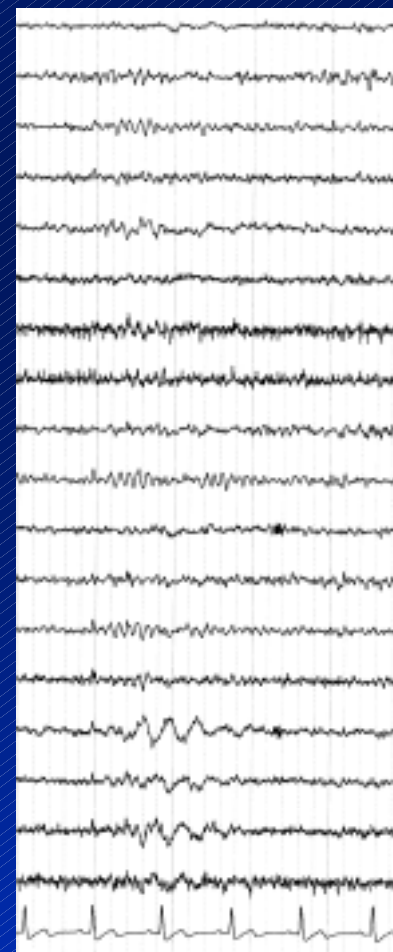
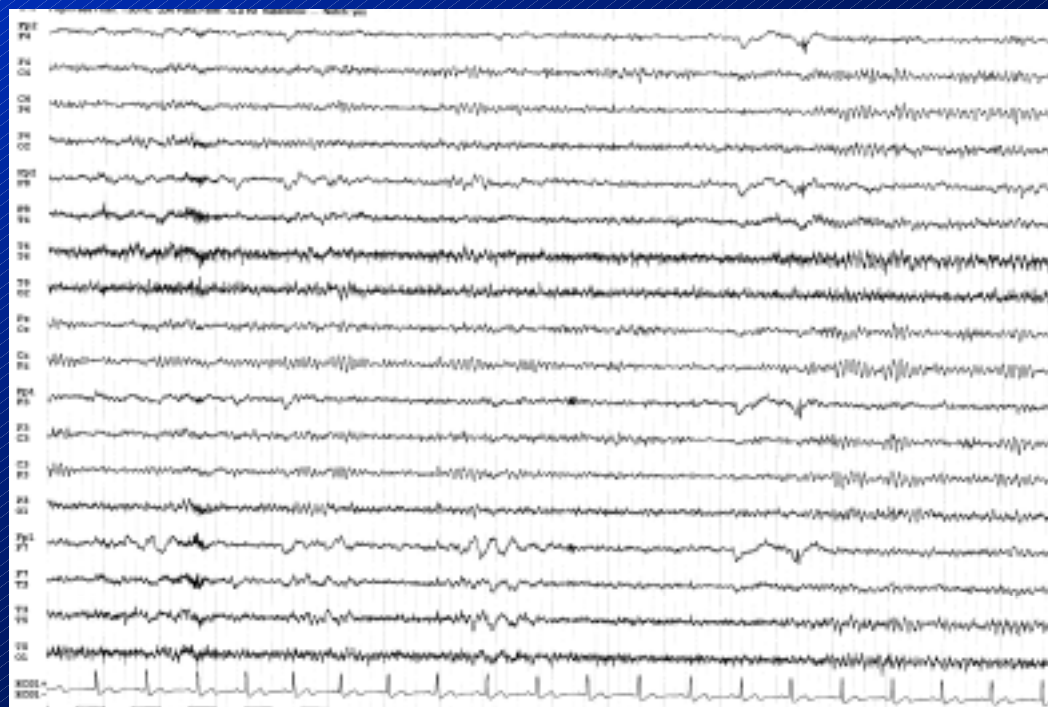
Accertamenti eseguiti/1

- EEG (feb. '03): **scariche di delta monomorfo** (tipo FIRDA) ora bisincrone **più spesso asincrone** dx e sn in tracciato con attività alfa di base.
- PESS AAll (marzo '03): **blocco di attivazione segmentaria midollare lombosacrale bilaterale**, conduzione afferente conservata
- Pot. evoc. dermatomerici L1 e L4: segni indicativi di **parziale blocco di conduzione a livello di L1 bilateralmente con riduzione di ampiezza per stimolazione sinistra**



tracciato EEG di febbraio 2003

scariche di delta monomorfo ora bisincrone
più spesso asincrone dx e sn in tracciato con
attività alfa di base.



Approccio terapeutico

Posto in terapia con Gabapentin con titolazione lenta a partire da gennaio '03 fino a 4000 mg/die (marzo '03), con beneficio sulla sintomatologia algica. Poi lentamente scalata fino a sospendere verso giugno '03.



Dopo la sospensione del Gabapentin, non vi è stata ripresa delle crisi dolorose. Sono stati quindi ripetuti alcuni accertamenti...

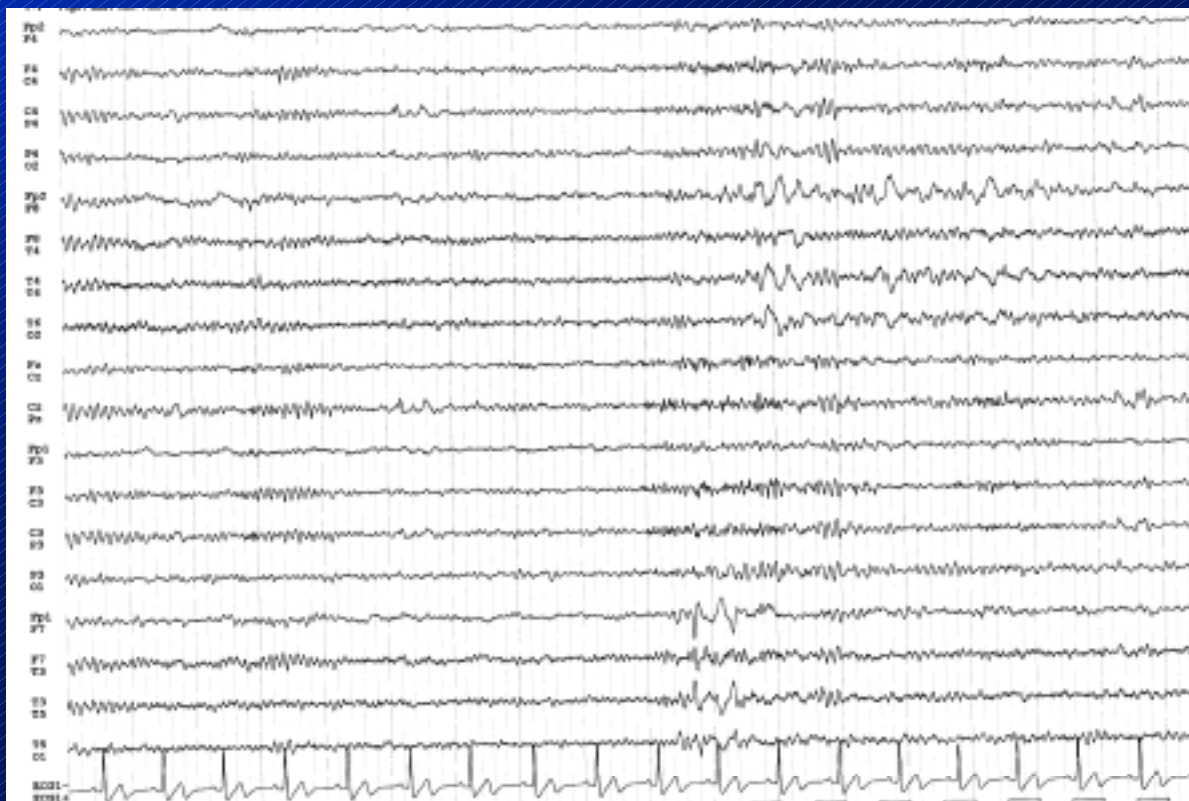
Accertamenti /2



- EMG (giugno '03): **normalizzazione** dei reperti rispetto al precedente del febbraio '03
- EEG (giugno '03): segni di sofferenza cerebrale profonda e **focolaio** poco attivo di attività parossistica **temporo-frontale sn** in tracciato modestamente rallentato nell'attività di fondo.
- Polisonnografia dopo deprivazione ipnica (luglio '03): abbondante attività lenta, localizzata a livello frontale e fronto-temporale bilaterale. In **regione fronto-temporale sn, verosimile focolaio parossistico caratterizzato da attività lenta con aspetto aguzzo**. La registrazione conferma i dati del precedente tracciato.
- PESS AAll (agosto '03): netta **ricomparsa del potenziale di attivazione midollare segmentaria T12** bilateralmente con ritardo di conduzione afferente a livello del tratto cono-cauda bilateralmente.
- Pot. evoc. dermatomerici L1 e L4 (agosto '03): persistenza di parziale rallentamento di conduzione afferente a livello L1 e più marcato a livello L4 per stimolazione dx. Nella norma a sn.
- Testistica neuropsicologica (funzioni intellettive, attentive ed esecutive, linguistiche, mnesiche, visuo-spaziali, di calcolo e prassiche): profilo cognitivo del tutto normale ad un'indagine neuropsicologica molto analitica e sensibile.

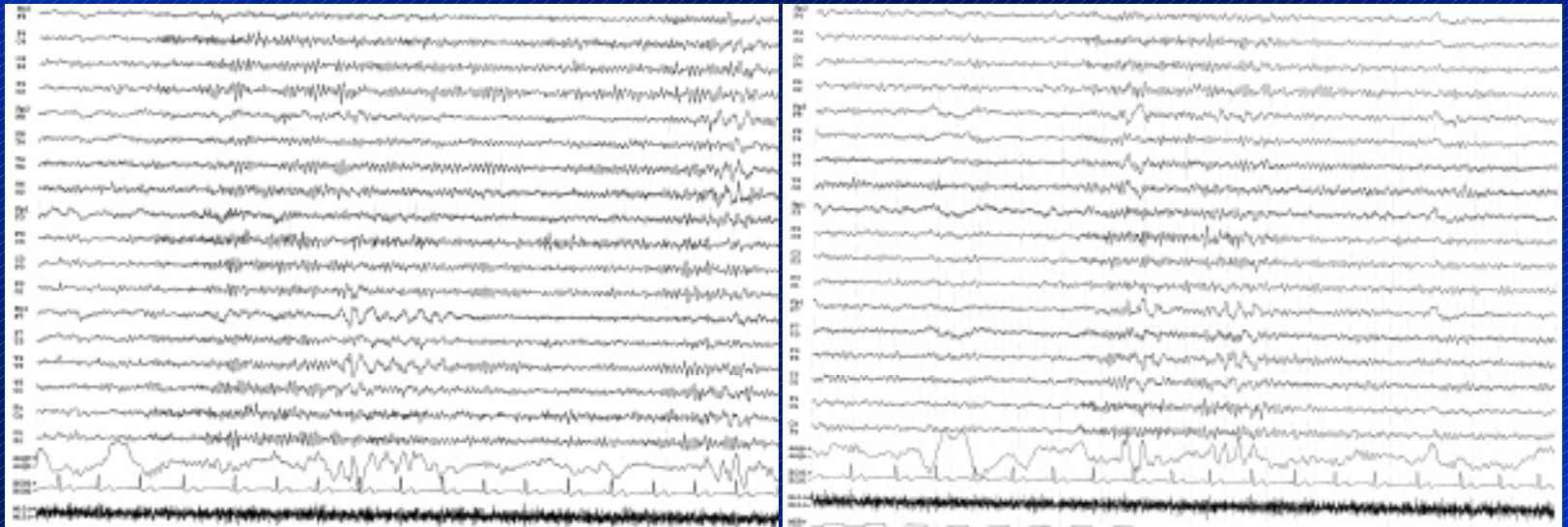
tracciato EEG di giugno 2003

segni di sofferenza cerebrale profonda e focolaio poco attivo di attività parossistica temporo-frontale sn in tracciato modestamente rallentato nell'attività di fondo.



tracciato EEG siesta di luglio 2003

abbondante attività lenta, localizzata a livello frontale e fronto-temporale bilaterale. In **regione fronto-temporale sn, verosimile focolaio parossistico caratterizzato da attività lenta con aspetto aguzzo**



FUNZIONI INTELLETTIVE

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Test di Intelligenza Breve (QI Stimato Prelesionale)</i>	P. 106 Media 100 DS 15	Normale
QI Verbale	P. 116 Media 100 DS 15	Normale
QI Non-verbale	P. 108 Media 100 DS 15	Normale
QI Totale		
WAIS-R	P. 94 Media 100 DS 15	Normale
QI Verbale	P. 111 Media 100 DS 15	Normale
QI Performance	P. 100 Media 100 DS 15	Normale
QI Totale	P. 10 Media 10 DS 3	Normale
Informazione	P. 5 Media 10 DS 3	Compromessa
Memoria di cifre	P. 6 Media 10 DS 3	Normale
Vocabolario	P. 8 Media 10 DS 3	Normale
Ragionamento aritmetico	P. 10 Media 10 DS 3	Normale
Comprensione	P. 9 Media 10 DS 3	Normale
Analogie	P. 8 Media 10 DS 3	Normale
Completamento figure	P. 7 Media 10 DS 3	Normale
Riordinamento storie figurate	P. 10 Media 10 DS 3	Normale
Disegno con i cubi	P. 10 Media 10 DS 3	Normale
Ricostruzione oggetti	P. 7 Media 10 DS 3	Normale
Associazione simboli a numero		

FUNZIONI ATTENTIVE ED ESECUTIVE

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Matrici Attentive (visual search)</i>	P. 55/60 Media 48.36 DS 8.55	Normale
<i>Test di Albert</i>	P. 40/40 Cut-off= 40	Normale
<i>Wisconsin Card Sorting Test (Heaton et al, 1993)</i>	P. 126	Normale
Numero prove somministrate	P. 97	Normale
Numero totale di risposte corrette	P. 29 (Punteggio T = 61, VN 50±10)	Normale
Numero totale di errori	P. 23 (Punteggio T = 65, VN 50±10)	Normale
Percentuale di errori	P. 2 (Punteggio T > 80, VN 50±10)	Normale
Risposte perseverative	P. 2 (Punteggio T > 80, VN 50±10)	Normale
Percentuale di risposte perseverative	P. 5 (Punteggio T > 80, VN 50±10)	Normale
Errori perseverativi	P. 4 (Punteggio T > 80, VN 50±10)	Normale
Percentuale errori perseverativi	P. 24 (Punteggio T = 43, VN 50±10)	Normale
Errori non perseverativi	P. 19 (Punteggio T = 44, VN 50±10)	Normale
Percentuale errori non perseverativi	P. 84	Normale
Risposte di livello concettuale	P. 66.7	Normale
Percentuale di risposte di livello concettuale	P. 6 (> 16° percentile)	
Numero di categorie completate	P. 12 (> 16° percentile)	
Prove per completare la prima categoria	P. 2 (1°-16° percentile)	
Fallimento nel mantenere la serie	P. 8.34 (> 16° percentile)	
Imparando a imparare		
<i>Brixton test</i>	P. scalare 7 (media alta)	Normale
<i>Stroop test</i>	P. 41 Media 29.2 DS 8.7	Normale
Denominazione colore	P. 66	Normale
Lettura parole	P. 24 Media 11.8 DS 4.2	
Denominazione inchiostro		
<i>Fluenza semantica</i>	P. 36 Media 33.88 DS 8.13	Normale
<i>Fluenza fonemica</i>	P. 37 Media 29.12 DS 10.9	Normale
<i>Giudizi Verbal</i>	P. 55/60 Media 49.87 DS 8.18	Normale
<i>Giudizi Aritmetici</i>	P. 10/10 Media 9.56 DS 1.17	Normale

FUNZIONI LINGUISTICHE

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Aachener Aphasia Test</i>	non afasia	Normale
Eloquio spontaneo	5 5 5 5 5 5	Normale
Test dei Gettoni (numero errori)	P. 0/50	Normale
Ripetizione	P. 148/150	Normale
Linguaggio Scritto	P. 90/90	Normale
Denominazione	P. 119/120	Normale
Comprensione	P. 120/120	
<i>Batteria del Linguaggio dell'Emisfero Destro</i>	P. 20/20 Media 19.75 DS 0.55	Normale
Test Lessicale-Semantico	P. 8/10 Media 9.2 DS 1.28	Normale
Test delle Metafore Scritte	P. 9/10 Media 6.25 DS 2.57	Normale
Test delle Metafore Visive	P. 10/12 Media 9.3 DS 1.49	Normale
Test del Significato Implicito	P. 7/10 Media 7.5 DS 1.99	Normale
Test dell'Umore	P. 10/10 Media 8.65 DS 0.81	Normale
Test di Accentuazione Enfatica	P. 44/44 Media 43.4 DS 1.35	Normale
Eloquio Spontaneo		

FUNZIONI MNESICHE

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Digit span diretto</i>	P. 5 Media 7 DS 2	Normale
<i>Digit span inverso</i>	P. 4 Media 5.35 DS 1.35	Normale
<i>Corsi block test</i>	P. 6 Media 4.77 DS 0.95	Normale
<i>Corsi inverso</i>	P. 6	Normale
<i>Riconoscimento di parole (Warrington)</i>	P. 45/50 Media 40.9 DS 4.8	Normale
<i>Supraspan visuo-spaziale (Corsi supraspan)</i>	P. 14.56 Media 17.81 DS 6.4	Normale
<i>Supraspan verbale (Buschke-Fuld)</i>	P. 66 Media 100.2 DS 38.3	Normale
- Rievocazioni totale	P. 29 Media 59.43 DS 46.96	Normale
- Rievocazioni non casuali	P. 6 Media 6.69 DS 2.65	Normale
- Rievocazioni differite		

FUNZIONI VISUO-SPAZIALI

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Visual Object Space Perceptio battery (VOSP)</i>	P. 20/20 Media 19.92 DS 0.33	Normale
Screening test	P. 19/20 Media 18.8 DS 1.4	Normale
Lettere incomplete	P. 23/30 Media 22.2 DS 4	Normale
Silhouettes	P. 19/20 Media 17.7 DS 1.9	Normale
Decisione di Oggetti	P. 7 Media 10.8 DS 2.5	Normale
Silhouettes progressive	P. 10/10 Media 9.9 DS 0.2	Normale
Conta di punti	P. 19/20 Media 19.6 DS 0.9	Normale
Discriminazione della posizione	P. 10/10 Media 9.4 DS 1.1	Normale
Locazione di numeri	P. 10/10 Media 9.2 DS 1.2	Normale
Analisi dei cubi		
<i>Birmingham Object Recognition Battery (BORB)</i>	P. 24/25 Media 21.6 DS 2.6	Normale
Test 8	P. 30/30 Media 27.5 DS 2.4	Normale
Test 12		

FUNZIONI DI CALCOLO

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Test dell'Acalculia</i>	P. 95.8 Cut-off >74	Normale

FUNZIONI PRASSICHE

STRUMENTI	PUNTEGGI	
<i>Test dell'Aprassia Buccofacciale</i>	P. 20/20 Media 19.87 DS 0.57	Normale
<i>Test dell'Aprassia Ideomotora</i>	P. 70/72 Cut-off >62	Normale
<i>Test dell'Aprassia Ideativa</i>	P. 14/14 Cut-off 14	Normale
<i>Test dell'Aprassia Costruttiva</i>	P. 14/14 Media 12.69 DS 1.51	Normale

GRAZIE