

resolved after catheter removal.

The patient, a 70-year-old man with chronic renal failure and class III heart failure was admitted to the hospital on 26 July 2010 with turbid peritoneal dialysate, non febrile, having mild abdominal pain and positive Rebound sign at the physical examination. Leucocyte cell count showed the presence of 1200 leucocytes/ μ l (neutrophil count of 90%) in the peritoneal dialysate but subsequent culture of the fluid resulted negative. Treatment started with vancomycin 15mg/kg/5 days i.p. and aztreonam 2gr/d i.p. for a total of 20 days. On 30 July 2010 cell count was 50 leucocytes/ μ l and the patient was discharged.

3 days later however, at the first control visit, the peritoneal dialysate was turbid anew, the patient presented the same clinical findings and cell count revealed the presence of 300 leucocytes/ μ l. A Gram positive, spherical microorganism that occurred in tetrads with circular, smooth, glistening and yellow colonies was recovered from the peritoneal dialysate. The microorganism was identified as *Kocuria varians* by the VITEK 2 system. The isolate was susceptible to gentamycin, erythromycin, clindamycin, tetracycline, glycopeptides and linezolid while it was resistant to levofloxacin by the disc diffusion method. Following laboratory report, the patient was treated with vancomycin alone (15mg/kg/5 days i.p. for a total of 20 days).

Turbidity of the peritoneal dialysate did not reappear until 27 August 2010 when the patient was admitted to the hospital with generalized abdominal pain, positive Rebound sign and cell count of 550 leucocytes/ μ l. *K. varians* was isolated for the second time and removal of the peritoneal catheter followed by insertion of a new one in a different position was considered. Culture of the removed catheter was positive for *K. varians*. Vancomycin i.p. was administered, subsequent cultures were negative and the patient

remained in good clinical condition since then.

Infections related to *K. varians* are uncommon but this species may act as opportunistic pathogen in immunocompromised patients with underlying diseases. Furthermore, *K. varians* is a biofilm forming bacterium⁴ thus probably complicating the antimicrobial treatment of catheter related infections. Erroneous identification of coagulase-negative Staphylococci as *Kocuria* spp. is possible and can be excluded with certainty only with the application of genotypic assays such as 16S RNA.¹ In the present case the Vitek 2 system using the new GP identification card⁵ reported a "very good identification" for all three isolations. This case report aims on emphasizing the importance of careful consideration of the laboratory and clinical procedures when rarely pathogenic microorganisms are isolated in the peritoneal dialysate of patients undergoing CAPD.

Conflicts of interest

The authors declare that there is no conflict of interest associated with this manuscript.

1. Stackebrandt E, Koch C, Gvozdiak O, Schumann P. Taxonomic dissection of the genus *Micrococcus*: *Kocuria* gen. nov., *Nesterenkonia* gen. nov., *Kytococcus* gen. nov., *Dermacoccus* gen. nov., and *Micrococcus* Cohn 1872 gen. emend. *Int J Syst Bacteriol* 1995;45:682-92.
2. Ben-Ami R, Navon-Venezia S, Schwartz D, Schlezinger Y, Mekuzas Y, Carmeli Y. Erroneous reporting of coagulase-negative Staphylococci as *Kocuria* spp. by the Vitek 2 system. *J Clin Microbiol* 2005;43:1448-50.
3. Tsai CY, Su SH, Cheng YH, Chou YL, Tsai TH, Lieu AS. *Kocuria varians* infection associated with brain abscess: A case report. *BMC Infect Dis* 2010;10:102.
4. Midelet G, Kobilinsky A, Carpentier B. Construction and analysis of fractional multifactorial designs to study attachment strength and transfer of *Listeria monocytogenes* from pure or

mixed biofilms after contact with a solid model food. *Appl Environ Microbiol* 2006;72:2313-21.

5. Boudewijns M, Vandeven J, Verhaegen J, Ben-Ami R, Carmeli Y. Vitek 2 automated identification system and *Kocuria kristinae*. *J Clin Microbiol* 2005;43:5832.

Georgios Meletis¹, Vasiliki Gogou¹, Maria Palamouti¹, Petros Spiropoulos², Kiriaki Xanthopoulou², Paraskevi Tantou¹, Artemisia Rizou¹, Vasileios Thomoglou¹

¹ Department of Clinical Microbiology.

Veroia G. Hospital, Veroia (Greece).

² Nephrology Department.

Veroia G. Hospital, Veroia (Greece).

Correspondence: Georgios Meletis

Department of Clinical Microbiology.

Veroia G. Hospital, Veroia, Greece.

meletisg@hotmail.com

Enfermedad de Paget poliostótica asintomática asociada a hiperparatiroidismo secundario en un paciente en diálisis peritoneal

Nefrología 2012;32(4):542-4

doi:10.3265/Nefrología.pre2012.Apr.11477

Sr. Director:

La enfermedad ósea de Paget (EP) es un trastorno focal del remodelado óseo que puede afectar a uno o más huesos¹. Es la segunda patología ósea más frecuente después de la osteoporosis y su diagnóstico en la mayoría de los casos se realiza mediante una bioquímica rutinaria, donde se aprecia elevación de la fosfatasa alcalina (FA), o en estudios de imagen realizados por otros motivos¹⁻³.

Su incidencia en pacientes con enfermedad renal crónica (ERC) es desconocida. Pocos han sido los casos comunicados en la literatura^{4,8}, y en algunos de ellos la presencia de EP se ve enmascarada por la presencia de hiperparatiroidismo secundario (HPS)^{4,6}, lo que dificulta su diagnóstico. En

este contexto presentamos el primer caso de un paciente en diálisis peritoneal (DP) en el que coexisten EP poliostótica con HPS.

Se trata de un varón de 72 años, con antecedentes de hipertensión arterial y artritis gotosa, diagnosticado de ERC de etiología desconocida en 1990 y remitido a nuestro centro en diciembre de 2007. En febrero de 2008 inicia DP continua ambulatoria. Antes de iniciar diálisis, el paciente presentaba cifras elevadas de paratormona (PTH) y FA; se le diagnosticó HPS, motivo por el cual recibió tratamiento inicialmente con cinacalcet y calcitriol y, posteriormente, paricalcitol y cinacalcet, con un deficiente control de las cifras de PTH a pesar de altas dosis, acompañado de cifras de FA persistentemente elevadas.

En mayo de 2011, se realiza tomografía computarizada para inclusión en lista de espera de trasplante renal y se objetiva una lesión esclerosa en el hueso ilíaco derecho. Posteriormente la gammagrafía ósea muestra un incremento en la captación del radiotrazador en columna cervical, primer dedo de mano derecha, cúbito izquierdo, articulación sacro-ilíaca derecha y, de menor intensidad, en maléolo externo del tobillo izquierdo, y en la serie ósea se confirma la presencia de lesiones esclerosas en columna cervical, cúbito izquierdo y articulación sacro-ilíaca derecha (figura 1).

Durante el seguimiento ha permanecido asintomático, sin dolores óseos, fracturas, ni otras complicaciones. Fue diagnosticado de EP con afectación poliostótica y, dada la ausencia de indicación actual de tratamiento, el paciente se encuentra en seguimiento periódico con vigilancia estrecha, recibiendo tratamiento para el HPS con cinacalcet y calcifediol.

DISCUSIÓN

La EP es un trastorno del remodelado óseo caracterizado por un incremento marcado de la resorción ósea, mediada por los osteoclastos, seguida de un incremento compensatorio de la formación de hueso. El tejido óseo generado presenta estructura y propiedades biomecánicas alteradas e induce complicaciones clínicas, como dolor y deformidad ósea, artrosis secundaria, fracturas,

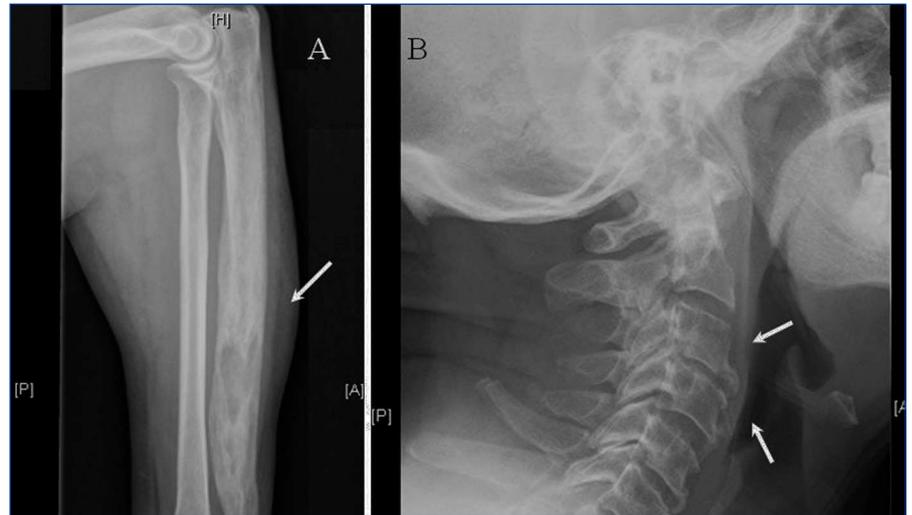


Figura 1. Enfermedad de Paget en enfermedad renal crónica.

Radiografía de antebrazo izquierdo (A) y columna cervical (B) que muestra lesiones esclerosas en cuerpos vertebrales y en cúbito izquierdo (flechas).

cefalea, estenosis del conducto raquídeo, síntomas de compresión neurológica y degeneración sarcomatosa¹⁻³. Su prevalencia en la población general oscila entre el 1,5 y el 4,5% por encima de los 40 años y aumenta con la edad, con un ligero predominio del sexo masculino, con una distribución geográfica variable². El seguimiento de la evolución con mediciones periódicas de FA refleja la extensión y el grado de actividad de la enfermedad¹. El tratamiento principal son los bifosfonatos, drogas capaces de modular la actividad del osteoclasto². Estudios aleatorizados sugieren que son capaces de reducir el dolor óseo y de disminuir los niveles de FA¹. Existe evidencia científica que avala el tratamiento en pacientes con dolores óseos, complicaciones neurológicas, hipercalcemia por inmovilización prolongada, en pacientes que van a ser sometidos a cirugía ortopédica electiva y en aquéllos con enfermedad activa en localizaciones como la base del cráneo, la columna vertebral y los huesos largos².

El tratamiento en pacientes asintomáticos es controvertido. El estudio PRISM⁹, un ensayo aleatorizado para comparar la eficacia de los bifosfonatos en un régimen intensivo, que busca normalizar la FA, frente al tratamiento sintomático en pacientes con dolores óseos, analizó una cohorte de 1324 pacientes y encontró que el tratamiento intensivo no confiere ventajas clí-

nicas (incidencia de fracturas, cirugía ortopédica, calidad de vida, dolor óseo y umbrales auditivos) en comparación con el manejo sintomático. Por ello, son necesarios estudios adicionales para evaluar si los efectos de los bifosfonatos se traducen en beneficios clínicos para los pacientes, y por tanto no se recomienda el tratamiento en pacientes asintomáticos.

En pacientes con ERC avanzada, la prevalencia de EP es incierta; hasta la fecha existen cinco casos comunicados en la literatura (tabla 1), cuatro en hemodiálisis (HD)^{4-6,8} y uno en DP⁷. En tres de los casos en HD, el HPS fue capaz de enmascarar la EP, y la elevación persistente de la FA tras la paratiroidectomía llevaron a su diagnóstico^{5,6,8}. Con respecto al tratamiento de estos pacientes, uno recibió calcitonina intravenosa y nasal⁷ y otros dos, bifosfonatos intravenosos^{5,8} (tabla 1). Las indicaciones de tratamiento fueron en dos casos los dolores óseos y en uno un cuadro de fiebre de bajo grado de larga evolución que se resolvió tras el inicio del tratamiento; ninguno de los pacientes presentó efectos adversos al tratamiento.

La seguridad del uso de bifosfonatos en pacientes con ERC en diálisis no está clara¹⁰. Existen casos anecdóticos de éxito en pacientes en diálisis, pero su número es muy limitado y la mayoría se han realizado con pacientes en HD. Los bifosfonatos, al ser captados por el hueso

Tabla 1. Casos de enfermedad de Paget en pacientes con enfermedad renal crónica en diálisis descritos en la literatura

Autor	Año	N.º de casos	Sexo /edad	Modalidad de TSR	Extensión de la EP	Hiperparatiroidismo secundario	Síntomas /tratamiento
Ringe JD ⁴	1985	1	F/48	HD durante 1 año	Diagnóstico tras paratiroidectomía	Severo Osteomalacia inducida por aluminio	Dolores óseos No tratamiento
Lorho R ⁶	1998	1	M/83	HD durante 6 años	Monostótica: pelvis Diagnóstico tras paratiroidectomía	Severo tratado con alfacalcidol y paratiroidectomía	No documentado
Etemadi J ⁸	2008	1	F/77	HD durante 2 años	Monostótica: cráneo Diagnóstico por FA elevada sin HPS	No	Dolores óseos Bifosfonatos orales (alendronato)
Wu L ⁷	2009	1	F/77	DP durante 3 meses	Monostótica: columna lumbar Afectación neurológica por estenosis del canal vertebral L3-L4 EP de 10 años de evolución	ND	Síndrome radicular Calcitonina intravenosa y nasal Descompresión quirúrgica en columna lumbar
Cianciolo G ⁵	2010	1	F/69	HD durante 3 años	Monostótica: cráneo Diagnóstico tras cuadro de fiebre de bajo grado	Severo, tratado con sevelamer, cinacalcet y paricalcitol	Cuadro de fiebre de bajo grado Bifosfonatos intravenosos (clodronato)

DP: diálisis peritoneal; EP: enfermedad de Paget; F: femenino; FA: fosfatasa alcalina; HD: hemodiálisis; HPS: hiperparatiroidismo secundario; M: masculino; ND: no datos; TSR: terapia sustitutiva renal.

hasta en un 50-80%, son capaces de provocar una disminución del remodelado óseo, lo que conlleva una dificultad para la reparación de microfracturas y deterioro de la calidad ósea¹¹. Incluso en pacientes con ERC, el depósito de los bifosfonatos a nivel óseo se cree que pueda ser proporcionalmente mayor y además está en relación con el grado de HPS, lo que conlleva el riesgo de inducir una enfermedad ósea adinámica en estos pacientes^{11,12}.

En conclusión, en pacientes con ERC, el HPS puede enmascarar el diagnóstico de EP, por lo que se requiere un alto índice de sospecha, y en estos casos la elevación persistente de la FA de origen óseo que suele persistir elevada tras la paratiroidectomía puede sugerir el diagnóstico de EP, aunque en muchos casos son las imágenes radiológicas compatibles realizadas por otros motivos las que determinan el diagnóstico.

Conflictos de interés

Los autores declaran que no tienen conflictos de interés potenciales relacionados con los contenidos de este artículo.

- Whyte, M. Clinical Practice. Paget's disease of bone. *N Engl J Med* 2006;355:593-600.
- Hologado S, Sallés M, Olivé A. Enfermedad ósea de Paget. *Med Clin (Barc)* 2008;131:509-12.
- Singer FR. Paget disease: when to treat and when not to treat. *Nat Rev Rheumatol* 2009;5:483-9.
- Ringe JD, Dellling G. Unusual course of renal osteopathy with Paget's disease and aluminum deposits. *Dtsch Med Wochenschr* 1985;110:411-5.
- Cianciolo G, La Manna G, Capelli I, Donati G, Persici E, Cuna V, et al. A case of Paget's disease in hemodialysis. *Clin Nephrol* 2010;73(5):403-7.
- Lorho R, Mourad G, Couret I, Argilés A. The dialysis patient with persisting elevation of bone alkaline phosphatase after parathyroidectomy. *Nephrol Dial Transplant* 1998;13:2394-6.
- Wu LC, Tseng CH, Chiang YF, Tsuang YH. Monostotic Vertebral Paget's Disease of Lumbar Spine. *J Chin Med Assoc* 2009;72(1):52-5.
- Etemadi J, Bagheri N, Falaknazi K, Ardalan M, Rahbar K, Nobakht Haghighi A, et al. Paget's Disease of Bone in a Patient on Hemodialysis. *Iran J Kidney Dis* 2008;2(2):105-7.
- Langston AL, Campbell MK, Fraser WD, MacLennan GS, Selby PL, Ralston SH; PRISM Trial Group. Randomized trial of intensive bisphosphonate treatment versus symptomatic management in Paget's disease of bone. *J Bone Miner Res* 2010;25(1):20-31.
- Ala-Houhala I, Saha H, Liukko-Sipi S, Ylitalo P, Pasternack A. Pharmacokinetics of clodronate in haemodialysis patients. *Nephrol Dial Transplant* 1999;14(3):699-705.
- Torregrosa JV, Ramos AM. Use of bisphosphonates in chronic kidney disease. *Nefrologia* 2010;30:288-96.
- Toussaint ND, Elder GJ, Kerr PG. Bisphosphonates in chronic kidney disease; balancing potential benefits and adverse effects on bone and soft tissue. *Clin J Am Soc Nephrol* 2009;4:221-33.

Erika de Sousa-Amorim, Gloria del Peso-Gilsanz, M. Auxiliadora Bajo-Rubio, Rafael Selgas-Gutiérrez

Sección de Nefrología.
Hospital Universitario La Paz.
Universidad Autónoma de Madrid.

Correspondencia: Erika De Sousa Amorim
Sección de Nefrología.
Hospital Universitario La Paz.
Universidad Autónoma de Madrid.
P.º La Castellana, 261. 28046 Madrid.
erikades4@gmail.com