

# Quieste subglótico adquirido como causa de estridor recurrente en un lactante

R. Villarino<sup>2</sup>, P. Maruszewski<sup>1</sup>, R.M. Martín-Crespo Izquierdo<sup>1</sup>, H. Ramírez Velandia<sup>1</sup>, N. Carrera Guermeur<sup>1</sup>, J.L. Antón-Pacheco Sánchez<sup>3</sup>, R. Luque Mialdea<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Servicio de Cirugía Pediátrica. Complejo Hospitalario de Toledo. <sup>2</sup>Servicio de Pediatría. Complejo Hospitalario de Toledo. <sup>3</sup>Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario 12 de Octubre. Madrid

## Resumen

**Introducción:** El estridor recurrente en lactantes requiere un diagnóstico diferencial exhaustivo y temprano, ya que en muchas ocasiones precisa un manejo urgente.

**Caso clínico:** Varón pretérmino de 26 semanas de gestación con episodios de estridor recurrente desde los 4 hasta los 9 meses de vida, y antecedente de intubación múltiple.

**Resultado:** Quieste subglótico tratado mediante videolaringoscopia y marsupialización con láser, con buen efecto clínico y endoscópico a los 6 meses del procedimiento.

**Conclusión:** Debe indicarse la endoscopia flexible en niños con estridor recurrente. La videolaringoscopia o broncoscopia rígida y marsupialización de quistes subglóticos con láser de diodo puede ser una técnica efectiva en la población pediátrica.

## Palabras clave

Quieste subglótico, estridor, broncoscopia flexible, broncoscopia rígida

## Abstract

**Title:** Acquired subglottic cyst as a cause of recurrent stridor in infant

**Introduction:** Recurrent stridor in infants requires exhaustive and early diagnosis since in many cases urgent treatment is needed.

**Clinical case:** A pre-term male infant of 26 weeks of gestational age at birth with multiple airway intubations presents recurrent stridor at the age between 4 and 9 months of age.

**Results:** Subglottic cyst successfully treated with laser marsupialization in video-laryngoscopy with good clinical outcome and normal endoscopic anatomy at 6 months after procedure.

**Conclusion:** A flexible airway endoscopy is indicated in children with recurrent stridor. Video-laryngoscopy or rigid bronchoscopy and laser marsupialization of subglottic cysts can be an effective technique in pediatric patient population.

## Keywords

Subglottic cyst, stridor, flexible bronchoscopy, rigid bronchoscopy

## Introducción

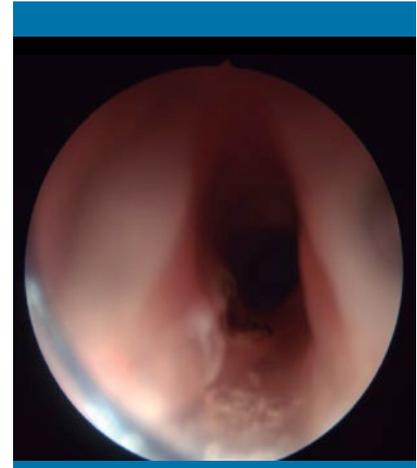
El estridor es el sonido producido durante la respiración, ocasionado por el colapso de la vía aérea y la oscilación del aire en la región posterior a una zona estrecha<sup>1</sup>. El estridor recurrente en lactantes requiere un diagnóstico diferencial exhaustivo y temprano, ya que en muchas ocasiones precisa un manejo urgente por potenciales consecuencias mortales. Mientras los quistes subglóticos congénitos son una causa rara de estridor en lactantes con una incidencia conocida de 1,82 por cada 100.000 nacidos vivos<sup>2</sup>, faltan datos



**Figura 1.** Broncoscopia flexible diagnóstica: quiste subglótico posterolateral



**Figura 2.** Broncoscopia rígida: marsupialización del quiste con láser de diodo



**Figura 3.** Broncoscopia rígida: resultado inmediato de la marsupialización del quiste

sobre la incidencia de quistes subglóticos adquiridos. Dada la relación de los últimos con la intubación en el periodo neonatal y el aumento de la supervivencia de los niños pretérmino, se sospecha un aumento de incidencia de quistes adquiridos en las últimas décadas<sup>3</sup>.

## Caso clínico

Varón pretérmino de 26 semanas de gestación con un peso al nacimiento de 1.115 g, diagnosticado de enfermedad de membrana hialina y broncodisplasia pulmonar. A los 8 días de vida, tras el tratamiento con 2 ciclos de ibuprofeno por persistencia de *ductus* arterioso permeable, se intervino de una perforación intestinal con la realización de una ileostomía. El tiempo de intubación endotraqueal y ventilación mecánica en periodo neonatal fue de 17 días. Otros antecedentes incluyen el reflujo gastroesofágico y la reconstrucción del tránsito intestinal a los 3,5 meses de vida.

Desde los 4 meses hasta los 9 meses de vida presentó episodios de dificultad respiratoria con estridor, asociados a infecciones respiratorias, que requirieron ingresos en la unidad de cuidados intensivos pediátrica. Entre los episodios agudos mantenía un grado leve de estridor inspiratorio postural, por lo que se sospechó la presencia de una laringotraqueomalacia. A los 9 meses de vida, dada la persistencia del estridor bifásico tras la recuperación de un episodio de infección respiratoria aguda, se indicó una broncoscopia flexible diagnóstica.

La exploración con fibrobroncoscopio Storz 11301BN1 (2,8 mm/600 mm), bajo sedación y en respiración espontánea, confirmó la presencia de un quiste subglótico posterolateral con obstrucción del 80% del lumen de la vía aérea (figura 1). Dados los antecedentes medicoquirúrgicos del paciente con intubación endotraqueal en varias ocasiones (tiempo total de ventilación mecánica de 51 días), el diagnóstico más probable era de un quiste subglótico de inclusión, por lo que se indicó tratamiento quirúrgico. Mediante videolarinoscopia con óptica rígida 0° de 3,4 mm se realizó una marsupialización del quiste con láser de diodo (2 pulsos de 2 s con potencia de 4W) (figura 2), con buen efecto inmediato (figura 3) y sin complicaciones posteriores precoces ni tardías. La fibrobroncoscopia de control realizada a los 6 meses del procedimiento mostraba una vía aérea de anatomía normal. El paciente presentó una resolución absoluta de la clínica de estridor y de la dificultad respiratoria.

## Discusión

Los quistes subglóticos adquiridos suelen asociar el antecedente de prematuridad e intubación temprana<sup>4-8</sup>. La mayoría de las lesiones aparecen en la región subglótica posterior, que es la zona más expuesta a traumatismos durante numerosos intentos de intubación e intubaciones traumáticas, o con tubo de diámetro inapropiado. La patología intercurrente, como la sepsis o la desnutrición, facilitan su formación. La ulceración, la necrosis y la granulación con fibrosis provocan una metaplasia escamosa que obstruye las glándulas mucosas y genera quistes<sup>9-11</sup>. La franja de edad más frecuente de presentación es de 4-6 meses<sup>5</sup>.

Las pruebas de imagen no confirman de forma definitiva el diagnóstico de quiste subglótico<sup>1,12,13</sup>. La tomografía computarizada permite visualizar el lumen de la vía aérea, aunque no aporta datos fiables sobre la estructura de su pared, que sí ofrece la resonancia magnética. El único método que permite la visión directa de la lesión y su comportamiento durante el ciclo respiratorio es la endoscopia flexible. A pesar de ser una técnica invasiva (sedación, riesgo de intubación tras el procedimiento), permite la posibilidad terapéutica durante el mismo procedimiento<sup>6</sup>. La patología respiratoria con estridor recurrente, sobre todo en niños con los factores de riesgo descritos previamente, indica la realización de una endoscopia flexible de la vía aérea como método diagnóstico definitivo en este tipo de lesiones. La videolaringoscopia o broncoscopia rígida y marsupialización de quistes subglóticos con láser de diodo puede ser una técnica efectiva en la población pediátrica<sup>13</sup>.

## Bibliografía

1. Quintero DR, Fakhoury K. Assessment of stridor in children. En: Redding G, ed. UpToDate. Waltham, MA: UpToDate Inc. [consultado el 10 de septiembre de 2017]. Disponible en: <http://www.uptodate.com>
2. Pak MW, Woo JK, Van Hasselt CA. Congenital laryngeal cysts: current approach to management. *J Laryngol Otol*. 1996; 110: 854-856.
3. Johnson LB, Rutter MJ, Shott SR, Cotton RT. Acquired subglottic cysts in preterm infants. *J Otolaryngol*. 2005; 34: 75-78.
4. Lim J, Hellier W, Harcourt J, Leighton S, Albert D. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2003; 67: 461-465.
5. Watson GJ, Malik TH, Khan NA, Sheehan PZ, Rothera MP. Acquired paediatric subglottic cysts: a series from Manchester. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007; 71: 533-538.
6. Downing GJ, Hayen LK, Kilbride HW. Acquired subglottic cysts in the low-birth-weight infant. Characteristics, treatment, and outcome. *Am J Dis Child*. 1993; 147: 971-974.
7. Agada FO, Bell J, Knight L. Subglottic cysts in children: a 10-year review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2006; 70: 1.485-1.488.
8. Steehler MK, Groblewski JC, Milmoie GJ, Harley EH. Management of subglottic cysts with mitomycin-C-A case series and literature review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2011; 75: 360-363.
9. Gould SJ, Young M. Subglottic ulceration and healing following endotracheal intubation in the neonate: a morphometric study. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1992; 101: 815-820.
10. Hawkins DB. Hyaline membrane disease of the neonate prolonged intubation in management: effects on the larynx. *Laryngoscope*. 1978; 88: 201-224.
11. Duynstee MLG, De Krijger RR, Monnier P, Verwoerd CDA, Verwoerd-Verhoef HL. Subglottic stenosis after endolaryngeal intubation in infants and children: result of wound healing processes. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2002; 62: 1-9.
12. Mobley SR, Pacheco E, Josephson GD. Magnetic resonance imaging in the diagnosis of subglottic cysts of infancy: case report and review. *Ear Nose Throat J*. 2002; 81: 260, 263-264, 266-267.
13. Smith SP, Berkowitz RG, Phelan PD. Acquired subglottic cysts in infancy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1994; 120: 921-924.