



## Anillo vascular como causa de estridor; a propósito de un caso

José Luis Copado Gutiérrez<sup>a</sup>, Cecilia Britton Robles<sup>b</sup>

<sup>a</sup>MIR-Pediatría. Programa Multicéntrico de Especialidades Médicas SSNL-ITESM. Monterrey. México

<sup>b</sup>Cardiología Intervencionista. Instituto de Cardiología y Medicina Vascular. Centro Médico Zambrano Hellion. Monterrey. México.

Publicado en Internet:  
16-noviembre-2016

José Luis Copado Gutiérrez:  
a00799839@itesm.mx

### Resumen

#### Palabras clave:

- Estridor
- Anillo vascular
- Malformación congénita
- Malformación congénita cardiovascular

El abordaje del paciente con estridor es un reto diagnóstico, ya que diversas entidades pueden ser responsables y los síntomas acompañantes son muy variables. Si bien la laringomalacia es por mucho la causa más frecuente, se deben considerar otras etiologías. Hasta un 5% de los pacientes con estridor pueden tener malformaciones cardiovasculares subyacentes que causen la compresión de la vía aérea responsable del estridor. Cuando se tiene esta sospecha, la mejor técnica de imagen es una angio-TC para definir la anatomía de las malformaciones y planificar su resolución quirúrgica.

Se presenta el caso de un lactante de 26 días, que tras haberle realizado una piloromiotomía presenta estridor de forma súbita. El diagnóstico en un primer momento se encubrió por el antecedente de la intubación quirúrgica; sin embargo, los estudios posteriores permitieron identificar un doble arco aórtico como responsable del estridor.

## Vascular ring as an etiology of stridor; a case report

### Abstract

#### Key words:

- Stridor
- Vascular ring
- Congenital malformation
- Cardiovascular congenital malformation

The approach to the patient with stridor may become a true diagnostic challenge, due to the broad spectrum of entities which may cause stridor and the accompanying symptoms are very variable. Although laryngomalacia is by far the most frequent cause, other etiologies should also be considered. Up to 5% of patients with stridor may have cardiovascular abnormalities that cause the extrinsic compression of the airway responsible for the stridor. Once suspected, usually a CT angiography is the best image technique to define the anatomy and plan its surgical repair.

We present the case of a 26-day-old infant who suddenly developed stridor after a pyloromyotomy. The diagnosis was at first concealed by the antecedent of surgical intubation; however, the subsequent studies allowed the identification of a double aortic arch as the responsible for the stridor.

## CASO CLÍNICO

Varón de 26 días de vida sin antecedentes familiares, prenatales o perinatales de relevancia. Hacia las tres semanas de vida comienza a presentar vómitos, que fueron en aumento, y el día previo a su

ingreso se presentaron con cada toma, abundantes y en proyectil. El paciente se mostraba ávido por comer y con buen estado general.

Al presentarse en el Departamento de Urgencias, se tuvo la sospecha clínica de estenosis hipertrófica de píloro, apoyada por una gasometría que

Cómo citar este artículo: Copado Gutiérrez JL, Britton Robles C. Anillo vascular como causa de estridor; a propósito de un caso. Rev Pediatr Aten Primaria. 2016;18:365-8.

mostraba alcalosis metabólica y un ultrasonido con imagen en diana característica. El paciente fue intervenido de forma abierta mediante la técnica de Ramstedt, sin incidencias. Antes del procedimiento el paciente fue intubado sin complicaciones.

A las 14 horas de la cirugía se escucha por primera vez estridor de predominio inspiratorio, que no se modificaba con el sueño, la posición ni con la alimentación. Se reinterrogó a la madre, que negó haberlo escuchado antes. El paciente no presentaba ningún dato de dificultad respiratoria ni desaturación del oxígeno en la pulsioximetría.

Dado que se trataba de un paciente previamente sano al que no se le había escuchado estridor antes, se sospechó que la intubación operatoria y el edema postraumático asociado pudieran ser la causa. Se administró nebulización con adrenalina y una dosis de dexametasona intravenosa. Tras dos horas, el estridor no se había modificado, y al continuar el paciente sin signos de dificultad respiratoria, se inició el abordaje de este problema.

En una radiografía simple de tórax no se observaron anomalías en el parénquima pulmonar, estructuras del cuello o columna de aire traqueal. Posteriormente, mediante una nasolaringoscopia flexible se comprobaron las estructuras supraglóticas y las cuerdas vocales íntegras, sin alteraciones morfológicas ni movimientos anormales.

El siguiente paso fue la realización de una serie fluoroscópica con contraste oral, que demostró una muesca en la pared posterior del tercio superior del esófago. Durante ese tiempo el paciente no mostró cambios en su sintomatología. Tras la cirugía de píloro no había vuelto a presentar vómitos. En ningún momento presentó datos de dificultad respiratoria asociados al estridor.

Días después se realizó una broncoscopia, en la que se observó una compresión extrínseca 2 cm por encima de la carina, pulsátil, que obstruía más del 50% de la luz de la tráquea y no se modificaba con presión positiva. Ante la fuerte sospecha de una malformación vascular que fuera responsable de la disminución del calibre traqueal, se realizó una angiografía por tomografía computarizada (angio-TC) (Fig. 1), en la que se pudo identificar un doble arco aórtico completo, con predominancia del arco derecho como causa de la constricción traqueal. La ecocardiografía fue normal.

El paciente fue operado por medio de una cirugía de abordaje torácico lateral izquierdo que se realizó sin contratiempos (Figs. 2 y 3).

En las primeras horas posquirúrgicas se notó una importante disminución en la intensidad del ruido inspiratorio. Fue dado de alta y durante las siguientes semanas el estridor residual continuó disminuyendo. No volvió a presentar síntomas respiratorios

Figura 1. Angio-TC: de izquierda a derecha, vistas cefálica, frontal y posterior de la reconstrucción tridimensional



Figura 2. Exposición del arco aórtico izquierdo (anterior), antes de su ligadura



Figura 3. Arco aórtico anterior seccionado. Se puede observar la distensión del esófago por detrás del arco, una vez liberado de la compresión vascular



ni digestivos, y en una consulta de seguimiento a dos meses de la cirugía el estridor terminó por desaparecer del todo.

## DISCUSIÓN

Se le llama estridor al sonido agudo, áspero y musical producido por el paso de aire de forma turbulenta a través de la vía aérea estrechada<sup>1</sup>. Esta

estrechez puede deberse a obstrucciones mecánicas, estructurales o por cambios inflamatorios.

Cuando se aborda al paciente pediátrico con estridor, se debe tener en mente que es únicamente un síntoma, y por tanto debe entenderse como la manifestación de algún desorden subyacente. La mayoría de las veces la causa es insidiosa y permite estudiar al paciente en forma ambulatoria. No obstante, puede haber casos en que el estridor sea el síntoma premonitorio de una enfermedad rápidamente progresiva que ponga en riesgo la vía aérea, como la epiglotitis o la aspiración de cuerpos extraños.

Es conveniente considerar las causas del estridor inicialmente desde la perspectiva de la edad. Las presentaciones agudas son las más frecuentes entre la población preescolar y escolar y es la inflamación de la vía aérea superior por procesos casi siempre de origen viral la causa más habitual, clínicamente se acompañan de otros síntomas que nos pueden orientar, como tos, rinorrea y fiebre. Por el contrario, la población neonatal y lactante suele manifestar el estridor de forma crónica, bien desde el nacimiento o adquirido de forma posnatal, en ocasiones al iniciar la alimentación complementaria.

Otros síntomas pueden ayudar a orientar la causa del estridor. Entre ellos están los cambios que la vigilia y el sueño, así como las distintas posturas, producen en la intensidad del estridor<sup>2</sup>. Asimismo, aunque el estridor típicamente se ha descrito como ruido inspiratorio, puede tener componentes bifásicos, o puramente inspiratorio o espiratorio y la caracterización del mismo puede orientar a un diagnóstico anatómico.

Otros componentes de la historia física y exploración pueden reflejar la gravedad e impacto de la causa del estridor, por ejemplo si el lactante se encuentra creciendo bien<sup>3</sup>.

Desde mediados del siglo XX se ha identificado a la laringomalacia como el diagnóstico más común en lactantes con estridor crónico<sup>1,4</sup>. Esto es bien reconocido entre aquellos pediatras de primer contacto y en unidades especializadas<sup>5,6</sup>. Aunque en la

mayoría de los casos los pacientes con laringomalacia experimentan resolución espontánea entre los 12-24 meses de edad, hasta un 20% de los pacientes experimentarán un empeoramiento, requiriendo intervenciones quirúrgicas<sup>1</sup>. Estas manifestaciones son muy amplias, y su repercusión tener alcances hasta generar fallo de medro o síndrome de apnea-hipopnea<sup>2</sup>.

Otra causa menos frecuente pero que se ha de considerar son los anillos vasculares. Se trata de anomalías congénitas del arco aórtico que producen compresión del árbol traqueobronquial y/o el esófago, produciendo síntomas respiratorios (estridor) o digestivos (disfagia, vómito). Aunque se desconoce su incidencia exacta, se estima que este grupo de enfermedades representa el 1-3% de las cardiopatías congénitas<sup>5</sup>. En una serie de 202 pacientes con estridor, los anillos vasculares fueron la causa en tres de los pacientes (4,5%)<sup>7</sup>.

Según la anatomía, los anillos vasculares pueden dividirse en dos grupos, completos (o verdaderos) e incompletos<sup>5</sup>. El grupo de los verdaderos es el más frecuente, siendo el doble arco aórtico responsable del 70-90% de los casos y el arco aórtico derecho con conducto arterioso izquierdo el causante de un 12-25% de los casos<sup>5</sup>. El grado y lugar preciso en que se encuentre la compresión ejercida por el anillo vascular determinará los síntomas que se manifiesten, que pueden variar desde problemas respi-

ratorios graves en los lactantes hasta disfagia que debuta en la niñez o inclusive pasar desapercibido y hallarse en forma incidental. Sin embargo, son precisamente los dos tipos de anillo vascular más frecuentes (doble arco aórtico y arco aórtico derecho con conducto arterioso izquierdo) los más comúnmente sintomáticos.

La sospecha clínica de anillo vascular suele aparecer al descartar causas laríngeas como origen del estridor, la mayoría de las veces por el resultado de una laringoscopia y en ocasiones por la broncoscopia. Los estudios de imagen a usar dependerán de la orientación diagnóstica, y por tanto no existe aún un *gold standard* en cuanto a técnicas de imagen<sup>4</sup>. En general, se recomienda la angio-TC como la primera elección; sin embargo, otras técnicas como la resonancia magnética han demostrado que pueden ser igualmente efectivas, aunque con la limitación de requerir la sedación de los pacientes<sup>4</sup>.

## CONFLICTO DE INTERESES

---

Los autores declaran no presentar conflictos de intereses en relación con la preparación y publicación de este artículo.

## ABREVIATURAS

---

**Angio-TC:** angiografía por tomografía computarizada.

## BIBLIOGRAFÍA

---

1. Boudewyns A, Claes J, VandeHeyning P. Clinical practice: an approach to stridor in infants and children. *Eur J Pediatr*. 2010;169:135-41.
2. Comín Cabrera C, Sánchez Perales F. Causas de estridor. Laringomalacia: dos formas de presentación poco habituales. *Rev Pediatr Aten Primaria*. 2015;17:e271-e278.
3. Escobar M, Needleman J. Stridor. *Pediatr Rev*. 2015; 36:135-7.
4. Leonardi B, Secinaro A, Cutrera R. Imaging modalities in children with vascular ring and pulmonary artery sling. *Pediatric Pulmonology*. 2015;50:781-8.
5. Licari A, Manca E, Rispoli GA. Congenital vascular rings: a clinical challenge for the pediatrician. *Pediatric Pulmonology*. 2015;50:511-24.
6. Valencia Ramos J, Mirás Veiga A, Alonso Álvarez ML, Gómez Sáez F, Oyágüez Ugidos PP, del Blanco Gómez I, et al. Conocimientos de los pediatras sobre la laringomalacia: ¿siempre es un proceso banal? *Rev Pediatr Aten Primaria*. 2016;70:e63-e72.
7. Zoumalan R, Maddalozzo J, Holinger L. Etiology of stridor in infants. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2007; 116:329-34.