

<sup>1</sup>Departamento de Neurociencias,  
Facultad de Medicina,  
Universidad de Chile. Santiago,  
Chile.

<sup>2</sup>Servicio de Neurología, Hospital  
del Salvador. Santiago, Chile.

<sup>3</sup>Servicio de Otorrinolaringología,  
Hospital del Salvador. Santiago,  
Chile.

Recibido el 7 de diciembre de  
2016, aceptado el 15 de junio  
de 2017.

Correspondencia a:  
Dr. Gabriel Cea  
Departamento de Neurociencias,  
Facultad de Medicina,  
Universidad de Chile  
jcea@med.uchile.cl

## Estridor y dificultad respiratoria: aproximación neurológica. Caso clínico

GABRIEL CEA M.<sup>1,2</sup>, CLAUDIO HENRÍQUEZ A.<sup>1,2</sup>, CARLOS TAPIA<sup>3</sup>

### Stridor and dyspnea caused by a conversion disorder. A case report

*Paradoxical vocal cord motion or vocal cord dysfunction is a descriptive term for an inappropriate adduction of the vocal cords during respiration, which can cause respiratory obstruction and stridor. It is associated with psychiatric conditions in the great majority of cases. We report a 23 year-old high performance female athlete, referred for a recurrent bilateral paralysis of the vocal cords, with a history of four intensive care unit admissions for severe dyspnea and stridor, which were treated several times with intubation and with tracheostomy on two occasions. Myasthenia gravis was suspected and she was treated with pyridostigmine and prednisone. She was discharged but despite the treatment, she presented new episodes of stridor and was readmitted six months later. This time the pharmacological treatment was suspended. The neurological study disclosed a normal brain magnetic resonance, normal cerebrospinal fluid analysis and a normal electromyography. A conversion disorder was suspected and the patient was successfully treated with psychotherapy.*

(Rev Med Chile 2017; 145: 808-811)

**Key words:** Conversion Disorder; Myasthenia Gravis; Vocal Cord Dysfunction.

El movimiento paradójico de cuerdas vocales (MPCV) es un trastorno de muy baja frecuencia. Se manifiesta como una obstrucción glótica episódica, en la cual, las cuerdas vocales aducen de forma inapropiada en inspiración y/o espiración<sup>1</sup>. Puede causar un episodio súbito de estridor y dificultad respiratoria, que puede ser muy alarmante<sup>2</sup>. Este fenómeno ha asumido variados nombres a través del tiempo, como “estridor psicógeno” y “obstrucción funcional de la vía aérea superior”, entre otros<sup>3</sup>. Fue inicialmente descrito por Patterson en 1974 como “estridor de Munchausen”, en una mujer de 33 años con historia de 15 hospitalizaciones por crisis obstructivas<sup>4</sup>, sugiriendo desde ese entonces una posible etiología psiquiátrica. El

diagnóstico es difícil de establecer, dado que se basa principalmente en la visualización directa, mediante laringoscopia, de las cuerdas vocales mientras el paciente tiene síntomas. Debido a esto, es frecuente que los pacientes usualmente sean mal diagnosticados, tratados como asmáticos, sometidos a intubaciones, traqueostomías, altas dosis de corticoides y múltiples hospitalizaciones<sup>5</sup>.

Presentamos el caso de una paciente joven, que presentó crisis recurrentes de estridor laríngeo con dificultad respiratoria, sometida a múltiples intubaciones y traqueostomizada en dos ocasiones. Esta comunicación cuenta con la aprobación del Comité de Ética Científico del Servicio de Salud Metropolitano Oriente.

## Caso clínico

Mujer de 23 años, deportista de alto rendimiento en artes marciales, con antecedente de reflujo gastroesofágico (RGE). Derivada desde el norte del país al Hospital del Salvador en agosto de 2014 con sospecha clínica de miastenia gravis (MG), por parálisis bilateral de cuerdas vocales a repetición. Presentaba 4 hospitalizaciones en unidades de cuidados intensivos (UCI), desde el año 2009 al 2013, debido a cuadros agudos de estridor y disnea severa, compatibles con parálisis cordales bilaterales súbitas. En todas las hospitalizaciones se realizó nasofibrolaringoscopías (NFL). En las 2 primeras se diagnosticó parálisis bilateral de cuerdas vocales en aducción y fue traqueostomizada.

Al ingreso a nuestro centro destacaba en su examen leve ptosis palpebral bilateral, mayor a derecha. Se planteó el diagnóstico de MG laríngea, teniendo en cuenta que la MG puede comprometer las cuerdas vocales<sup>6-8</sup>. Se inició tratamiento de prueba con piridostigmina de 60 mg 4 veces al día, manteniéndose asintomática y sin ptosis. Una semana después, se suspendió la dosis matinal de piridostigmina, para la realización de un test de estimulación repetitiva, desarrollando rápidamente una crisis súbita, caracterizada por estridor laríngeo, disnea y polipnea, con ausencia de cianosis y desaturación. Fue intubada e ingresó a la Unidad de Cuidados Intensivos (UCI) para ventilación mecánica invasiva. Evolucionó favorablemente, siendo extubada a las pocas horas. La NFL posterior a la extubación evidenció una cuerda vocal inmóvil y otra parética. Inmediatamente después del procedimiento presentó otra crisis de similares características y es reintubada, manteniéndose un día en ventilación mecánica. Se repitió NFL, al alta de la UCI, en la que se evidenció ambas cuerdas vocales móviles. La Figura 1 muestra cuerdas vocales en aducción con un pequeño hiato posterior. El *scanner* de tórax con contraste, el test de estimulación repetitiva en los nervios ulnar y accesorio, a 2 y 3 Hz, fueron normales. Fue dada de alta con diagnóstico de MG laríngea y tratamiento con piridostigmina 60 mg 6 veces al día y prednisona 40 mg al día. En su estudio sólo quedó pendiente el resultado de los anticuerpos Anti-AchR y Anti-Musk.

Encontrándose de alta, y a pesar de tratamiento farmacológico, presentó dos nuevos episodios respiratorios que requirieron hospitalización en

su hospital base y en uno de ellos, intubación. Seis meses después del alta, ingresó nuevamente en nuestro hospital, se replanteó diagnóstico y se retiró el tratamiento farmacológico para observar evolución. La resonancia magnética (RM) de cerebro, líquido cefaloraquídeo, anticuerpos anti-AchR y anti-Musk, electromiografía de laringe, electromiografía de cuatro extremidades, estudio de estimulación repetitiva, en los nervios cubital y accesorio y el estudio de fibra única, en músculo frontal, fueron todos normales.

Durante la hospitalización presentó una parésia súbita palpebral derecha, que empeoró con prueba de hielo, asociado a diplopía multidireccional e hipoestesia derecha, de minutos de duración. Este cuadro cedió de forma espontánea tras tranquilizar a la paciente. Con este nuevo episodio y dado que presentaba examen clínico neurológico variable y poco consistente, se sospechó un trastorno somatomorfo o simulación y se solicitó una evaluación psiquiátrica. En esta evaluación se obtuvo el antecedente de violencia intrafamiliar, con abuso físico y psicológico por parte del padre. Los episodios de dificultad respiratoria se presentaban en momentos de discusiones parentales, sugere de un cuadro conversivo en contexto de un trastorno de personalidad histriónico. Se inició psicoterapia durante la hospitalización y se mantuvo al menos dos semanas más en nuestro centro para observación, sin corticoides ni anticolinérgicos. Durante este período estuvo asintomática y sin nuevas crisis respiratorias. Se concluyó que el cuadro no era compatible con MG y se plantea

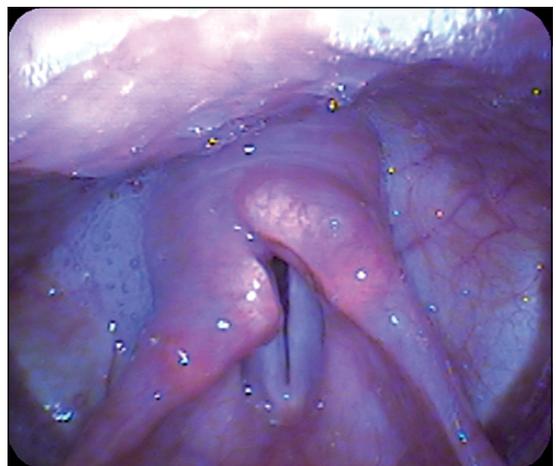


Figura 1.

como posible etiología un MPCV asociado a un trastorno psiquiátrico conversivo. Fue dada de alta con tratamiento para RGE y psicoterapia. No ha vuelto a presentar crisis respiratorias obstructivas en estos dos años.

## Discusión

En este caso, se formuló el diagnóstico de MG que debuta con parálisis cordal bilateral recurrente. La paciente presentaba alteraciones intermitentes al examen neurológico sugerentes de trastorno neuromuscular, como ptosis palpebral y diplopía. Además, los exámenes laríngeos (NFL) evidenciaban parálisis o paresia cordal transitoria.

La presentación de MG con parálisis cordales aislada es excepcional. Se desconoce la sensibilidad y especificidad de los exámenes diagnósticos en esta variante<sup>8</sup>. El compromiso respiratorio inicial en la MG es infrecuente, incluso algunos autores aseveran que "nunca es el primer síntoma de la enfermedad"<sup>9</sup>. La dificultad respiratoria en crisis se debe casi exclusivamente a debilidad diafragmática y de musculatura intercostal, no a alteraciones de la vía aérea superior<sup>10</sup>. Sólo se conocen reportes aislados de MG laríngea, con paresia y parálisis cordal de inicio agudo<sup>11</sup>, pero se trata de pacientes mayores a 40 años, con diagnóstico previo de MG, quienes ya han presentado síntomas oculares o generalizados<sup>10</sup>.

En nuestro caso, la paciente es joven y con severa comorbilidad psiquiátrica. En el seguimiento de las crisis respiratorias obstructivas y atípicas, se pudo constatar que no se acompañaron de cianosis ni alteraciones de la saturación. Los exámenes de NFL laríngea mostraron resultados variables. El examen neurológico era también variable y poco consistente. La paciente presentó crisis respiratorias a pesar de la terapia con anticolinesterásicos y corticoides, y su retiro no influyó en la evolución. Evolucionó sin nuevas crisis luego del inicio de la psicoterapia y explicación del origen de su problema.

El MPCV es una entidad que se presenta principalmente en pacientes jóvenes. Su etiología es desconocida, pero un factor psicológico ansioso/depresivo es considerado el más relevante<sup>1,5</sup>. Hasta la década 1990-99 era atribuido exclusivamente a trastorno psiquiátrico, pero se ha encontrado asociaciones con ejercicio físico e irritantes laríngeos,

entre los que se encuentran RGE e intubaciones previas<sup>2</sup>. El cuadro clínico se caracteriza por obstrucción paroxística, generalmente recurrente, de la vía aérea, que se expresa por estridor, disnea y polipnea, sin cianosis, hipoxia ni desaturación asociada<sup>2</sup>. Las crisis respiratorias pueden ser espontáneas, pero muchas veces inducidas por ejercicios o emociones intensas. El diagnóstico es difícil, se basa en un alto índice de sospecha ante un paciente que se ahoga de forma súbita, sin tener síntomas vegetativos ni cianosis, y en la visualización de la aducción anómala de las cuerdas vocales durante la crisis<sup>3</sup>. Los principales diagnósticos diferenciales son las crisis asmáticas o miasténicas<sup>12</sup>, motivo por el cual se requiere espirometría y test de provocación normales para su diagnóstico.

El manejo del episodio agudo se basa en maniobras para distraer el foco de la crisis con el fin de abortarla. Se usa como estrategia la respiración lenta, hacer pronunciar una "s" durante al espiración, el jadeo y la tos<sup>13</sup>. Con estas acciones se persigue activar el músculo cricoaritenario posterior, principal músculo abductor de las cuerdas vocales<sup>14</sup>. El manejo de los cuadros crónicos corresponde principalmente a la terapia fonoaudiológica, la eliminación de factores precipitantes como el tabaquismo y RGE, y el manejo específico de comorbilidad psiquiátrica. La terapia fonoaudiológica a largo plazo ha demostrado reducir síntomas y recurrencia<sup>15</sup>. En casos refractarios se ha usado toxina botulínica en la musculatura laríngea, pero su efecto sería limitado a 7-14 semanas<sup>1</sup>.

Cabe señalar que el pronóstico de estos pacientes es sumamente variable. Si bien es una condición generalmente autolimitada, puede ser recurrente y refractaria al tratamiento, sobre todo cuando se asocia a comorbilidad psiquiátrica severa.

## Conclusión

Se expone el caso de una paciente con MPVC asociado a un trastorno conversivo según estudio clínico y evolución, el que en un comienzo se interpretó como una MG con parálisis cordal bilateral súbita, asociación que es infrecuente.

El médico de urgencia, neurólogo y otorrinolaringólogo deben conocer esta patología y sospecharla, especialmente en pacientes que presenten crisis obstructiva respiratorias caracterizadas por

estridor sin cianosis ni desaturación asociadas, sin antecedente de enfermedad neuromuscular y con examen neurológico normal. Es esencial distinguir entre paresia y parálisis de cuerdas vocales y saber que la aducción parética es infrecuente. El desconocimiento dificulta el diagnóstico y facilita la realización de procedimientos invasivos innecesarios con potencial daño iatrogénico.

## Referencias

1. Altman K, Mirza N, Ruiz C, Sataloff R. Paradoxical vocal fold motion: Presentation and treatment options. *J Voice* 2000; 14 (1): 99-103.
2. Dinulos JG, Karas DE, Carey JP, Del Beccaro MA. Paradoxical vocal cord motion presenting as acute stridor. *Ann Emerg Med* 1997; 29 (6): 815-7.
3. Morris MJ, Christopher K. Diagnostic criteria for the classification of vocal cord dysfunction. *Chest* 2010; 138 (5): 1213-23.
4. Patterson R, Schatz M, Horton M. Munchausen's stridor: non-organic laryngeal obstruction. *Clin Exp Allergy* 1974; 4 (3): 307-10.
5. Ibrahim W, Gheriani HA, Almohamed AA, Raza T. Paradoxical vocal cord motion disorder: past, present and future. *Postgrad Med J* 2007; 83 (977): 164-72.
6. Schmidt-Nowara WW, Marder EJ, Feil PA. Respiratory failure in myasthenia gravis due to vocal cord paresis. *Arch Neurol* 1984; 41: 567-8.
7. Jiménez PE, Fermin JA, Trigo I, Casado I. Parálisis de cuerdas vocales como forma de presentación de miastenia gravis con anticuerpos anti-MuSk. *Neurología* 2014; 29: 253-4.
8. Teramoto K, Kuwabara M, Matsubara Y. Respiratory Failure due to vocal cord paresis in myasthenia gravis. *Respiration* 2002; 69: 280-2.
9. Dushay KM, Zibrak JD, Jense WA. Myasthenia gravis presenting as isolated respiratory failure. *Chest* 1990; 97: 232-4.
10. Putman MT, Wise RA. Myasthenia gravis and upper Airway obstruction. *Chest* 1996; 109: 400-4.
11. Mao VH, Abaza M, Spiegel JR, Mandel S, Hawkshak M, Heuer RJ, et al. Laryngeal Myasthenia Gravis: Report of 40 cases. *J Voice* 2001; 15 (1): 122-30.
12. Kanemaru S, Fukushima H, Kojima H, Kaneko K, Yamashita M, Ito JA. Case report of myasthenia gravis localized to the larynx. *Auris Nasus Larynx* 2007; 34: 401-3.
13. Lund DS, Gamel GM, Kaplan GS, Tom PA. Hysterical stridor: a diagnosis of exclusion. *Am J Emerg Med* 1993; 11(4): 400-2.
14. Pitchenik AE. Functional laryngeal obstruction relieved by panting. *Chest* 1991; 100(5): 1465-7.
15. Deckert J, Deckert L. Vocal cord dysfunction. *Am Fam Physician* 2010; 81(2): 156-9.