



Fístula traqueoesofágica congénita, una causa rara de tos crónica en el adulto

Sr. Editor: La fístula traqueoesofágica congénita suele diagnosticarse en la infancia debido a su frecuente asociación con atresia o estenosis esofágica. Si no están presentes estas alteraciones del esófago, puede pasar inadvertida durante varios años y diagnosticarse en el adulto.

Presentamos el caso de un paciente varón de 36 años diagnosticado de asma bronquial intrínseca leve desde la infancia que consultó por tos moderada diaria de predominio nocturno y con el ejercicio, y expectoración blanco-amarillenta escasa, síntomas que se incrementaban con las infecciones respiratorias. Se objetivaron sibilancias espiratorias en la auscultación pulmonar. Realizaba tratamiento con agonistas β_2 a demanda y no era fumador.

Se inició tratamiento con corticoides inhalados, con mejoría clínica, y tras 2 años de seguimiento se objetivó en una radiografía de tórax de control gran dilatación esofágica con engrosamiento de la línea paratraqueal posterior que no se había detectado en radiografías previas, y así como una fusión en la zona posterior de los arcos costales derechos 6 y 7.

Se realizó un esofagograma donde se visualizaron dilatación esofágica y paso de contraste a la vía aérea. La manometría esofágica puso de manifiesto un trastorno motor del cuerpo esofágico con ondas de baja amplitud, y baja presión del esfínter esofágico inferior. En la esofagogastroscoopia a 24 cm de la arcada dentaria, se apreciaba un orificio de unos 3 mm de diámetro en la cara anterior del esófago con mucosa de aspecto normal y borde liso.

En la fibrobroncoscopia se visualizó una pequeña fístula posterior en el tercio superior de la tráquea de 3-4 mm. La espirometría era normal.

Con el diagnóstico de fístula traqueoesofágica congénita tipo H se intervino al paciente y se identificó un trayecto fistuloso a la altura de D3. Se procedió a la resección de la fístula y al cierre de la tráquea y el esófago con pleuroplastia de suturas. En la anatomía patológica se objetivó tejido muscular revestido de epitelio plano poliestratificado, sin signos de malignidad.

Tras la intervención quirúrgica desaparecieron los síntomas respiratorios y al cabo de 2 años se realizó otra esofagogastroscoopia por dispepsia y pirosis; entonces se apreciaron una pequeña hernia hiatal y esofagitis grado II.

Las fístulas traqueoesofágicas pueden ser congénitas o adquiridas. En estas últimas la neoplasia es la etiología más frecuente (sobre todo esofágica); otras causas pueden ser enfermedades infecciosas (más frecuentemente de tipo granulomatoso como la tuberculosis), traumatismo torácico o iatrogénicas debidas a intervenciones quirúrgicas, procedimientos diagnósticos o ventilación mecánica¹.

Las congénitas son poco frecuentes, se producen por una separación incompleta del extremo craneal del intestino en porción respiratoria y digestiva durante el período embrionario^{2,3}. Suelen diagnosticarse en la infancia debido a su frecuente asociación con atresia o estenosis esofágica, y en los raros casos sin enfermedad esofágica (tipo H, un 1-4%) pueden pasar inadvertidas y diagnosticarse en el adulto⁴.

Los síntomas suelen ser tos, especialmente con la deglución de líquidos (signo de Ohno), hemoptisis e infecciones pulmonares frecuentes que podrían producir bronquiectasias y absceso de pulmón⁵.

Este paciente presentaba tos crónica desde la infancia, la fístula se localizaba en la tráquea, los síntomas respiratorios desaparecieron des-

pués de la intervención quirúrgica, presentaba fusión en una zona entre los arcos costales 6 y 7 derechos y la anatomía patológica de la fístula puso de manifiesto un epitelio plano poliestratificado y una capa muscular, todo lo cual apoya la etiología congénita.

Para el diagnóstico son útiles el tránsito esofagográfico, la esofagoscopia, la fibrobroncoscopia, la tomografía computarizada y la resonancia magnética⁶. En ocasiones en la radiografía de tórax se observa dilatación esofágica⁷, como sucedió en este paciente. Se han descrito alteraciones en el esfínter esofágico inferior, aperistalsis y atonía, que persisten tras la intervención quirúrgica, que es el tratamiento de elección⁸⁻¹⁰.

La fístula traqueoesofágica congénita debe tenerse en cuenta en el diagnóstico etiológico de la tos crónica, si bien en última instancia, tras haber descartado otras causas mucho más frecuentes.

Carmen López Represa^a,
M. Isabel Parra Parra^b,
M. Antonia Remacha Esteras^c
y Maribel Tabuyo Pizarro^a

^aServicio de Neumología.

Hospital Universitario Río Hortega. Valladolid. España.

^bServicio de Neumología. Hospital Monte San Isidro. León.

^cServicio de Microbiología. Hospital Monte San Isidro. León. España.

1. Vásquez RE, Landay M, Kilman WJ, Estrera A, Schreiber T. Benign esophagorespiratory fistulas in adults. *Radiology* 1988;167:93-6.
2. Martín E, Arnau A, Cantó A, Lluç RV, Galbis J, García B. Fístula traqueoesofágica congénita en un varón de 15 años. *Arch Bronconeumol* 1996;32:202-4.
3. Crisera CA, Grau JB, Maldonado TS, Kadison AS, Longaker MT, Gittes GK. Defective epithelial-mesenchymal interactions dictate the organogenesis of tracheoesophageal fistula. *Pediatr Surg Int* 2000;16:256-61.
4. Gudovsky LM, Koroleva NS, Biryukov YB, Cherenkov AF, Perelman MI. Tracheoesophageal fistulas. *Ann Thorac Surg* 1993;55:868-75.
5. Lim KH, Lim YC, Liam CK, Wong CM. A 52-year-old woman with recurrent hemoptysis. *Chest* 2001;119:955-7.
6. Azoulay D, Regnard JF, Magdeleinat P, Diamond T, Rojas-Miranda A, Levasseur P. Congenital respiratory-esophageal fistula in the adult. Report of nine cases and review of the literature. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1992;104:381-4.
7. Grenier PA, Beigelman-Aubry C, Fetita C, Preteux F, Brauner MW, Lenoir S. New frontiers in CT imaging of airway disease. *Eur Radiol* 2002;12:1022-44.
8. Zach MS, Eber E. Adult outcome of congenital lower respiratory tract malformations. *Thorax* 2001;56:65-72.
9. Deb S, Ali MB, Fonseca P. Congenital bronchoesophageal fistula in an adult. *Chest* 1998;114:1784-6.
10. Gundry SR, Orringer MB. Esophageal motor dysfunction in an adult with a congenital tracheoesophageal fistula. *Arch Surg* 1985;120:1082-3.



Síndrome confusional tras interrupción brusca de consumo de nicotina

Sr. Editor: El síndrome de abstinencia de nicotina (SAN) es una entidad bien conocida que aparece alrededor de 2 h después de cesar el consumo de la sustancia, alcanza su pico de intensidad entre 24 y 48 h más tarde y

puede durar semanas o meses. Cursa generalmente con irritabilidad, tensión, dificultad para concentrarse, somnolencia con insomnio paradójico, aumento de apetito con ganancia de peso, disminución del gasto cardíaco y de la presión sanguínea, y deseo intenso de consumir tabaco¹. Sin embargo, por lo que sabemos, no se ha descrito ningún caso en el que el SAN curse con un síndrome confusional (búsqueda bibliográfica realizada en Medline con los términos *delirium*, *nicotine* y *withdrawal*; *confusional*, *nicotine* y *withdrawal*; *smoking* y *cessation*; desde el año 1965 a 2002). Describimos el caso de un paciente diagnosticado de síndrome confusional cuya etiología bien pudiera ser un SAN.

Varón de 71 años sin antecedentes familiares de interés, fumador diario de 60 cigarrillos y 10 pipas desde la adolescencia, no bebedor ni consumidor de otros tóxicos. Ingresó en nuestro hospital para estudio de una disfagia baja para sólidos, de carácter progresivo y de 3 meses de evolución, que tras las exploraciones complementarias se atribuyó a un carcinoma esofágico T2N0M0. Coincidiendo con su ingreso hospitalario interrumpió su consumo de tabaco de forma brusca. El tercer día de ingreso presentó un cuadro fluctuante de alteración de la conciencia, con hipoproxemia, desorientación, alteración de la memoria e inversión del ciclo sueño-vigilia, que fue diagnosticado de síndrome confusional², y al que acompañaba la mayoría de los síntomas propios del SAN (principalmente irritabilidad, tensión e intenso deseo de fumar). Las constantes del paciente (presión arterial, frecuencia cardíaca y temperatura) eran normales. En el momento del cuadro el paciente no tomaba ningún fármaco y el análisis urinario de fármacos y drogas (benzodiacepinas, cannabinoides, opiáceos, anfetaminas, tricíclicos, metadona y barbitúricos) fue negativo. El hemograma, la bioquímica sérica (incluyendo albúmina y transaminasas) y urinaria, el ionograma sérico y urinario, y el electrocardiograma fueron normales. La tomografía computarizada (TC) craneal también fue normal. El electroencefalograma evidenciaba enlentecimiento generalizado. Se trató al paciente de forma empírica con triapride (dosis máxima diaria, 600 mg), que se sustituyó a los 6 días por clometiazol (dosis máxima diaria, 1.400 mg) por falta de respuesta. Después de 4 días con este segundo tratamiento, que no mejoró significativamente el cuadro, y a la luz de los resultados obtenidos en las exploraciones complementarias, se inició tratamiento con nortriptilina (50 mg diarios) para tratar el SAN³. Coincidiendo con la introducción de este fármaco el paciente comenzó a mejorar, hasta una normalización de su función cognitiva en el plazo de 48 h. Al alta la exploración psicopatológica era normal y la función cognitiva no presentaba alteraciones (Minimental, 35/35).

El paciente descrito presentó durante su ingreso un síndrome confusional agudo. Dicho cuadro puede deberse a causas intracraneales o extracraneales⁴. Las primeras pueden descartarse en este caso debido a la normalidad de la TC y al resultado del electroencefalograma, a la ausencia de antecedentes de epilepsia y a la resolución completa del cuadro. Entre las causas extracraneales se pueden descartar aquellas que sin tratamiento específico no habrían cedido (disfunción endocrina, déficit nutricionales) y aquellas que habrían producido alteraciones en los análisis de laboratorio (hepatopatía, nefropatía, sepsis, alteraciones hidroelectrolíticas). La intoxicación por fármacos⁵ es una causa muy frecuente que puede descartarse debido a que el paciente no estaba medicado en el momento en que se produjo el síndrome.

Se trata pues de un síndrome confusional cuya etiología no pudo establecerse, que no respondió al tratamiento con un neuroléptico ni al tratamiento con clometiazol, que se acompañaba

de síntomas suficientes para el diagnóstico de SAN y que cedió coincidiendo con la introducción de un fármaco de eficacia probada en dicho síndrome. A nuestro juicio, es posible que en la génesis del síndrome confusional tenga algún papel la abstinencia de nicotina –en especial en pacientes con consumo habitual elevado de la sustancia–, que produciría cuadros resistentes a los tratamientos habituales. Por ello, la abstinencia de nicotina debería evaluarse y, en su caso, tratarse en fumadores importantes que interrumpen su consumo en el ámbito hospitalario.

Lucas García Thuring, María Martínez Vigo,
y Luis Iruela Cuadrado

Servicio de Psiquiatría. Hospital Puerta de Hierro.
Madrid. España.

1. Hughes JR, Gust SW, Skoog K, Queman RM, Fenwick JW. Symptoms of tobacco withdrawal: a replication and extension. Arch Gen Psychiatry 1991;48:52-9.
2. Altirir Losada S, Prats Roca M. Síndrome confusional en ancianos. Med Clin (Barc) 2002;119:386-9.
3. Prochaska AV, Keller RT, Fryer GE. A randomized trial of nortriptyline for smoking cessation. Arch Intern Med 1998;158:2035-9.
4. Lipowsky ZJ. Update on delirium. Psychiatr Clin North Am 1992;15:335-43.
5. Vila A, San José A, Roure C, Armadans L, Villardell M. Estudio multicéntrico prospectivo de reacciones adversas a medicamentos en pacientes ancianos hospitalizados. Med Clin (Barc) 2003;120:613-18.



Epilepsia mesial temporal en un paciente con hidrocefalia asimétrica

Sr. Editor: Las epilepsias que cursan con crisis parciales complejas son las que con más frecuencia se diagnostican en el adulto y son el resultado habitual de procesos sintomáticos (orgánicos) de localización mesial. La dilatación del sistema ventricular encefálico o hidrocefalia es una enfermedad con muy escasa capacidad comicial. Presentamos un caso clínico excepcional por la asociación causal de una hidrocefalia asimétrica de predominio lobar temporal derecho y crisis epilépticas parciales secundariamente generalizada.

Varón de 17 años que acudió al servicio de urgencias por crisis convulsiva generalizada. Nacido a término sin antecedentes de interés, durante el período neonatal temprano se apreciaron aumento del perímetro cefálico y trastorno de la motilidad ocular (estrabismo) que precisó cirugía correctora; no fue posible una mejor filiación por carecer de datos más precisos. El desarrollo psicomotor fue normal, salvo en su rendimiento académico, lo que ocasionó fracaso escolar y abandono de estudios en la infancia tardía. La inserción laboral actual es adecuada como operario de maquinaria. A los 16 años de edad tuvo una primera crisis convulsiva tónico-clónica generalizada que se repitió durante ese año en 3 ocasiones. Se le realizó estudio videoelectroencefalográfico convencional en vigilia (sistema digital, electrodos en el cuero cabelludo según el sistema 10/20, montajes referenciales y bipolares, sin privación de sueño). Durante esa exploración presentó una crisis parcial compleja de unos 45 s. Ésta se inició en el electroencefalograma (EEG) en electrodos temporales derechos T4 y T6 en forma de actividad rítmica theta con puntas de baja amplitud, progresó durante 15 s de manera «reticulante» hacia regiones ipsolaterales frontales y occipitales, rápidamente se generalizó durante 25-30 s en forma de descargas de punta-onda irregular lenta

Fig. 1. Hidrocefalia triventricular con disminución de surcos y circunvoluciones en ambos hemisferios, importante asimetría con gran dilatación del asta temporal derecha. El ventrículo IV es normal y el acueducto está libre. No se observan hallazgos indicativos de actividad de la hidrocefalia. En esta proyección T2 se aprecian una disminución de volumen del hipocampo derecho y un aumento de la señal en relación con la significativa presencia de esclerosis mesial temporal derecha.

a 1-2 Hz y ondas delta de gran amplitud, y finalizó como una actividad lenta focal temporal derecha (poscrítica) durante 30 s para concluir con el retorno a la actividad de fondo previa. Clínicamente presentó un descenso inicial del nivel de conciencia con ligera postura distónica del miembro superior izquierdo, que progresó hacia la completa desconexión del medio con automatismos orolinguales (eupráticos) que se correspondieron con la generalización de la actividad epiléptica en el EEG, seguido de confusión postictal prolongada, con recuperación completa posterior en relación con el retorno a la actividad EEG basal. Se realizó una resonancia magnética craneal (fig. 1) que mostró una acusada hidrocefalia triventricular con disminución de surcos y circunvoluciones en ambos hemisferios cerebrales, asimetría marcada con gran dilatación del asta temporal derecha. El ventrículo IV era normal, el acueducto estaba libre y se apreciaba también una megacisterna magna. No se observaron hallazgos radiológicos indicadores de hidrocefalia activa. En T2 se apreció una disminución de volumen del hipocampo derecho con aumento de la señal, lo que hizo pensar en el diagnóstico radiológico de esclerosis mesial temporal. El tratamiento con carbamazepina oral en dosis progresiva hasta 200 mg/8 h fue bien tolerado y permitió un control excelente de las crisis.

Las hidrocefalias no sometidas a derivaciones quirúrgicas (*shunts*) y la epilepsia son enfermedades cuya relación, aunque conocida, es poco habitual, tan sólo un 2-10% de todas las hidrocefalias¹⁻⁶ cursan con epilepsia. Las etiologías de la hidrocefalia al nacimiento comprenden como más habituales hemorragias ventriculares y periventriculares congénitas, otros traumatismos obstétricos, infecciones, cromosomopatías y formas idiopáticas. La epilepsia temporal mesial aparece en adultos que han sufrido agresiones congénitas o durante la infancia (convulsiones febriles prolongadas, por ejemplo) que han lesionado por una mayor susceptibilidad las neuronas de esas regiones. En el paciente que describimos fue imposible confirmar una causa, y de acuerdo con los hallazgos videoelectroencefalográficos, clínicos y radiológicos, el origen epiléptico se situó en estructuras profundas mesiales derechas, con gran probabilidad temporales^{7,8}. El diagnóstico

topográfico en epilepsias mesiales, bien frontales, bien temporales, es difícil. Se han señalado ciertos signos diferenciadores: a) respecto a las características clínicas⁹, crisis parciales complejas esporádicas (no en brotes) y de duración variable, automatismos poco elaborados, mano distónica contralateral al del inicio EEG¹⁰, poscrítico confusional prolongado, y b) en cuanto a la semiología del EEG, inicio y finalización en electrodos temporales T4 y T6 (no se suelen utilizar electrodos «especiales» ni semiinvasivos), progresión crítica hacia regiones próximas ipsolaterales con posterior generalización, morfología peculiar de los grafolementos críticos y precríticos (intercríticos), estos últimos como anomalías focales epiléptiformes uni o bilaterales (simétricas o asimétricas). En este caso se objetivó una crisis parcial compleja de origen mesial derecho, con probabilidad temporal, difusión hemisférica ipsolateral y generalización secundaria. En la neuroimagen, además de la hidrocefalia, se apreció como hecho más llamativo una esclerosis mesial temporal derecha, lesión con conocida capacidad epileptógena. La fisiopatología de la epilepsia temporal mesial se asienta en la pérdida de neuronas temporomesiales reguladoras del flujo interneuronal, es decir, se comportan como «filtros» inhibitorios. Esto permite el paso indiscriminado de actividades neuronales, entre ellas las consideradas aberrantes (epilépticas), que en número e intensidad suficiente pueden convertirse en crisis epilépticas. La topografía lesional justifica la expresión clínica por el protagonismo de la zona en la conciencia/vigilia. La correlación clínica, EEG y radiológica en este paciente proporciona una asociación casual y excepcional entre dos entidades: hidrocefalia de predominio lobar temporal y epilepsia parcial sintomática temporal mesial.

José Manuel Pardo Fernández^a,
Pedro Jerez García^a, Blanca Rallo Gutiérrez^a,
y Joaquín Marco Giner^a

Unidad de Electroencefalografía. ^aServicio de Neurofisiología Clínica. Hospital General Universitario. Albacete. ^bServicio de Neurología. Hospital General Universitario. Albacete. España.

1. Graebner RW, Celesia GG. EEG findings in hydrocephalus and their relation to shunting procedures. Electroencephalogr Clin Neurophysiol 1973; 35: 517-20.
2. Kramer U, Nevo Y, Reider-Groswasser I, Sheuer E, Meyer JJ, Leitner Y, et al. Neuroimaging of children with partial seizures. Seizure 1998;7: 115-8.
3. Al-Sulaiman AA, Ismail HM. Pattern of electroencephalographic abnormalities in children with hydrocephalus: a study of 68 patients. Childs Nerv Syst 1998;14:124-6.
4. Saukkonen AL, Serlo W, Von Wendt L. Epilepsy in hydrocephalic children. Acta Paediatr Scand 1990;79:212-8.
5. Mihara T, Asakura T. Investigations on epileptogenic lesions in relation between ages of the patients and seizure manifestation. Folia Psychiatr Neurol Jpn 1981;35:267-74.
6. Varfis G, Berney J, Beaumanoir A. Electro-clinical follow-up of shunted hydrocephalic children. Childs Brain 1977;3:129-39.
7. Roger J, Genton P, Bureau M, Medina MT, Drevet C. Clasificación de las epilepsias y de los síndromes epilépticos. Congreso Internacional de La Liga contra La Epilepsia. New Delhi, 1989.
8. Saiz Díaz RA, Gil-Nagel Rein A. ¿Tiene el paciente una epilepsia parcial? Continua Neurológica 2000;3(Supl 2):1-20.
9. Bautista RE, Spencer DD, Spencer SS. EEG findings in frontal lobe epilepsy. Neurology 1998; 50:1765-71.
10. Gil Nagel A, Risinger MW. Ictal semiology of hippocampal vs extrahippocampal temporal lobe epilepsy. Brain 1997;120:101-10.