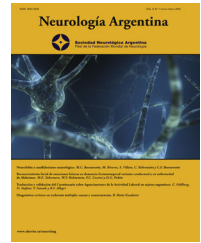




Sociedad Neurológica Argentina
Filial de la Federación Mundial
de Neurología

Neurología Argentina

www.elsevier.es/neurolarg



Caso clínico

Síndrome del acento extranjero secundario a resección de glioblastoma; reporte de caso y revisión de la literatura

Jose Ricardo Muñoz-Zuñiga^{a,*}, Valeria Valencia-Cifuentes^a
y Alberto Masaru Shinchí-Tanaka^b

^a Residente de Neurología, Fundación Valle del Lili, Universidad ICESI, Cali, Colombia

^b Neurólogo, Fundación Valle del Lili, Universidad ICESI, Cali, Colombia

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 29 de marzo de 2022

Aceptado el 28 de julio de 2022

On-line el 17 de octubre de 2022

Palabras clave:

Glioblastoma

Habla

Prosodia

Síndrome de acento extranjero

América Latina

R E S U M E N

El síndrome de acento extranjero es un trastorno del habla donde la persona articula su lengua nativa con un acento que es percibido como foráneo. Se caracteriza por presentar déficits segmentarios y prosódicos contrastantes en parámetros fonológicos normales sin violar reglas gramaticales. Hasta el 2015 solo había 105 casos reportados: la mayoría asociados a la lengua inglesa. Se presenta el caso de una hispanohablante, quien posteriormente a una resección tumoral presenta un síndrome de acento extranjero de origen neurogénico, con posterior revisión del tema y material multimedia complementario.

© 2022 Publicado por Elsevier España, S.L.U. en nombre de Sociedad Neurológica Argentina.

Foreign accent syndrome secondary to glioblastoma resection; case report and literature review

A B S T R A C T

Foreign accent syndrome is a speech disorder where the person articulates their native language with an accent that is perceived as non-native. It is characterized by contrasting segmental and prosodic deficits in normal phonological parameters without violating grammatical rules. Until 2015 there were only 105 reported cases: mostly English related cases. We present the case of a Spanish user, who after a tumor resection, presents a foreign accent syndrome of neurogenic origin, with subsequent review of the topic and complementary multimedia material.

© 2022 Published by Elsevier España, S.L.U. on behalf of Sociedad Neurológica Argentina.

Keywords:

Glioblastoma

Speech

Prosody

Foreign accent syndrome

Latin America

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: endlessjose@gmail.com (J.R. Muñoz-Zuñiga).

<https://doi.org/10.1016/j.neuarg.2022.07.009>

1853-0028/© 2022 Publicado por Elsevier España, S.L.U. en nombre de Sociedad Neurológica Argentina.

Introducción

El síndrome de acento extranjero es un trastorno del habla donde el paciente articula su lengua nativa con un acento que es percibido como extranjero. Se caracteriza por presentar déficits segmentarios y prosódicos contrastantes en parámetros fonológicos normales sin violar reglas gramaticales¹. Se desconoce su incidencia, aunque desde su primera descripción, realizada en 1907, y hasta el 2015 solo se habían reportado 105 casos similares². Puede clasificarse como neurogénico, psicógeno o mixto³. Aquí presentamos el caso de una paciente quien tras una resección tumoral presenta un síndrome de acento extranjero de origen neurogénico; posteriormente se realiza una revisión del tema.

Caso clínico

Paciente femenina de 60 años, docente, con cuadro clínico que inició en diciembre de 2019 consistente en cefalea en trueno, holocraneana, asociado a dolor retroocular derecho, epífora ipsilateral y disartria. Tenía antecedente de gastritis crónica con *Helicobacter pylori* positiva tratada, hernia hiatal con esofagitis y miomatosis uterina, por lo cual se había realizado histerectomía. Como antecedentes familiares, su padre falleció por cáncer de hígado, su hermana falleció por cáncer de seno, su madre tuvo cáncer renal y de colon y su hermano tuvo cáncer de riñón. En su primera consulta recibió manejo sintomático con mejoría del dolor retroocular. En los días siguientes consultó nuevamente por sensación de cuerpo extraño en el ojo derecho, siendo tratada como conjuntivitis aguda, sin mejoría de los síntomas. Posteriormente notó que tendía a lateralizar la marcha hacia la izquierda y que al escribir palabras omitía algunas y al hablar no pronunciaba fonemas.

De forma ambulatoria consulta al servicio de oftalmología, donde encuentran aumento de la presión intraocular con borramiento de la papila en el fondo de ojo derecho, por lo que la remiten al servicio de urgencias. A su ingreso se le realizó una tomografía de cráneo simple y una resonancia magnética (RM) cerebral simple. Las imágenes reportaron un tumor de características malignas de captación irregular con necrosis interna, que apuntaba a un glioblastoma estadio IV, localizado anterior al área motora y sensitiva primaria y superior al área de Wernicke, y delante del área de Gerstmann, alcanzando hasta el fascículo arcuato en profundidad. Fue valorada por neurocirugía, donde encontraron que en el examen físico la paciente presentaba temblor distal en los miembros superiores, leve disminución de la fuerza (4/+5) en la mano derecha, disfasia, apraxia del lenguaje y discalculia.

Se indicó una RM funcional (fig. 1) con tractografía y secuencia BOLD para función motora, somatotópica, cálculo y lenguaje para guiar la resección quirúrgica supramarginal con mapeo cerebral corticosubcortical despierto. Fue llevada a cirugía, logrando la resección completa del tumor confirmada por RM posquirúrgica. La anatomía patológica reportó glioblastoma subtipo wild que expresa proteína glial intensa y difusa, sinaptofisina positiva de aspecto neural primitivo, ausencia de mutación IDH1 con p53 del 90%, Ki67 del 40%, ATRX no mutado, MGMT no metilado. Como complicación

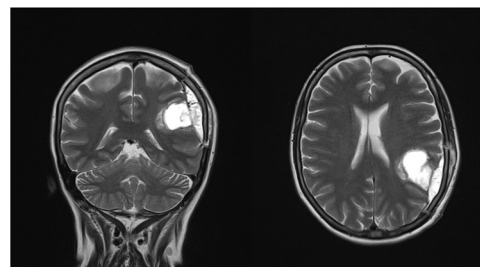


Figura 1 – Resonancia magnética contrastada con gadobutrol; corte sagital (A) y transversal (B). Se aprecian en secuencia T2 contrastada cambios posquirúrgicos por resección de lesión en región parietal izquierda con craniectomía parietal ipsilateral y se observa realce paquimeníngeo adyacente al sitio quirúrgico, realce leptomeníngeo fino difuso, y prominencia de surcos y cisuras por pérdida de volumen del parénquima cerebral. Imagen tomada con resonador magnético de 1.5 Tesla. Fuente: Los autores.

postoperatoria la paciente presentó alteración del habla no caracterizada en la estancia hospitalaria. Se dio egreso con indicación de terapia de rehabilitación del lenguaje, neurológica y control por especialidad cada 3 meses con RM cerebral de control según protocolo STUPP. Recibió 30 sesiones de quimioterapia (temozolomida) y radioterapia según concepto de oncología, los cuales terminó exitosamente.

Finalmente, la paciente asistió a consulta de control con neurología. Al evaluarla se evidenció alteración en el habla que se presentaba de manera intermitente e inconsciente al emitir lenguaje, consistente en cambios en la prosodia que la hacían parecer hablando con un acento extranjero. La paciente es enfática en que desde la cirugía presenta la alteración del habla y en ocasiones confunde las sílabas al escribir. En ocasiones podía hablar claro, otras veces hablaba con acento, y otras con disartria. Fonológicamente se caracterizaba por aumento de la entonación, por cambios en aspectos suprasegmentarios del habla, cambios en el ritmo que oscilaban entre bradilalia y taquilalia, parafasias literales y disfluencia en repetición de sílabas y muletillas. Las alteraciones fueron mejorando con el tiempo, a pesar de no haber realizado terapias fonoaudiológicas tempranas en su postoperatorio. [Anexo](#) al relato clínico se incluyó un audio de una conversación con la paciente.

Discusión

El síndrome de acento extranjero es una afección infrecuente, descrito por primera vez en 1907 por Pierre Marie⁴. Históricamente se ha caracterizado en idiomas como el inglés, el francés, el noruego, el holandés y el portugués^{3,5-8}. En cuanto al idioma español, se ha reportado en Argentina⁹, España¹⁰ y México¹. En Colombia se ha descrito una sola vez, por Estrada-Orozco et al.¹¹, por lo que, a conocimiento de los autores, este sería el segundo caso clínico publicado en el país. Las etiologías más comúnmente reportadas incluyen la enfermedad cerebrovascular, el traumatismo craneoencefálico, la esclerosis múltiple, vasculitis, enfermedades

neurodegenerativas, trastornos mentales y tumores¹². Las lesiones de estos pacientes suelen estar localizadas en el hemisferio izquierdo, generalmente involucrando la corteza motora primaria, la corteza premotora y/o los ganglios de la base. Sin embargo, también se han reportado en ambos hemisferios y en regiones infratentoriales¹². En nuestro caso, la paciente presentó compromiso de varias áreas elocuentes y de profundidad suficiente para comprometer el fascículo arcuato.

Los cambios percibidos en la prosodia son el resultado de una alteración particular en el tono, la entonación, la duración, el estrés y la elongación. Sin embargo, también puede haber desviaciones fonéticas, como cambios, reducciones o eliminaciones en la articulación de consonantes y vocales. Hay aspectos motores adicionales, como la bradilalia, que es una disminución en la fluidez del ritmo del habla¹¹. Puede ser confundido con la apraxia¹³. En general, la expresión verbal se caracteriza por sustituciones fonéticas, articulación laboriosa, errores secuenciales e intentos infructíferos de autocorrección. Dichos errores no varían dependiendo de la tarea¹¹. Normalmente estas se han caracterizado por alteraciones segmentarias, que incluyen tiempo de pronunciación de vocales, cambios en consonantes y pronunciación, y alteraciones suprasegmentarias o prosódicas, que incluyen ritmo, entonación de frases y palabras, inserción de vocales, pobre transición entre palabras e inversión de tonalidad¹.

El diagnóstico de este síndrome es principalmente clínico e incluye daños en los segmentos de ritmo y sonido, que es similar al sonido normal pero diferente en acento antes del daño cerebral^{1,14}. Existen unos criterios diseñados por Whitaker que incluyen: que el acento sea considerado por el paciente y examinador como extranjero, que sea diferente al dialecto nativo del paciente antes del daño cerebral, que se pueda explicar por lesión en el sistema nervioso central y que no haya evidencia de antecedentes de que el paciente hable una lengua extranjera¹³. En el caso expuesto la paciente presentaba todos los criterios.

Respecto al tratamiento, no hay ninguno específico realmente eficaz. No obstante, hay reportes de que las terapias de fortalecimiento apoyadas en ejercicio funcional y la terapia del habla y lenguaje generalizada tienen eficacia clínica en este contexto, pudiéndose recuperar el acento normal. También se ha propuesto que la retroalimentación auditiva retardada podría ser útil en estos casos. Sin embargo, la información es anecdótica¹⁵. Adicionalmente se recomienda considerar como parte del tratamiento los síntomas emocionales que pudiese ocasionar el síndrome, puesto que se han documentado dificultades para adaptarse a la pérdida de una parte de su identidad y a la percepción de sus congéneres¹⁶. En nuestro caso se considera que un factor agravante durante su recuperación fue la falta de oportunidades para acceder a la terapia del lenguaje para iniciar su rehabilitación, lo que contribuyó a que la paciente desarrollara como desenlace adverso un trastorno depresivo mayor.

Financiación

Los autores declaran que no han recibido ningún tipo de financiación de parte de alguna persona o institución para el desarrollo de este manuscrito.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses respecto a este manuscrito.

Anexo. Material adicional

Se puede consultar material adicional a este artículo en su versión electrónica disponible en [doi:10.1016/j.neuarg.2022.07.009](https://doi.org/10.1016/j.neuarg.2022.07.009).

BIBLIOGRAFÍA

1. Buentello-García RM, Martínez-Rosas AR, Cisneros-Franco JM, Alonso-Vanegas MA. Síndrome de acento extranjero. Arch Neurol. 2011;16:167-9.
2. Verhoeven J, De Pauw G, Pettinato M, Hirson A, van Borsel J, Mariën P. Accent attribution in speakers with Foreign Accent Syndrome. J Commun Disord. 2013;46:156-68.
3. Verhoeven J, Mariën P. Neurogenic foreign accent syndrome: Articulatory setting, segments and prosody in a Dutch speaker. J Neurolinguistics. 2010;23:599-614.
4. Marie P. Présentation de malades atteints d'anarthrie par lésion de l'hémisphère gauche du cerveau. Bull Mem Soc Med Hop Paris. 1907;24:864-5.
5. Laures-Gore J, Henson JC, Weismer G, Rambow M. Two cases of foreign accent syndrome: An acoustic-phonetic description. Clin Linguist Phon. 2006;20:781-90.
6. Roy JP, Macoir J, Martel-Sauvageau V, Boudreault CA. Two French-speaking cases of foreign accent syndrome: An acoustic-phonetic analysis. Clin Linguist Phon. 2012;26:934-45.
7. Monrad-Krohn GH. Dysprosody or altered melody of language. Brain. 1947;70:405-15.
8. Barreto SS, Ortiz KZ. Speech in the foreign accent syndrome: Differential diagnosis between organic and functional cases. Dement Neuropsychol. 2020;14:329-32.
9. Sosa F, Bustamante J, Rodríguez F, Argañaraz R, Rubino P, Lambre J. Remisión de aneurisma luego de exéresis de MAV con aparición de síndrome del acento extranjero. Surg Neurol Int. 2017;8 Suppl 1:S1-4.
10. González-Álvarez J, Parcet M, Ávila C, Geffner-Sclarsky D. Una rara alteración del habla de origen neurológico: el síndrome del acento extranjero. Rev Neurol. 2003;36:227-34.
11. Estrada-Orozco K, Montañés P, Bonilla-Vargas K, Alfonso C, Pardo R, Riaño F. Beyond prosody: Foreign accent syndrome in a Spanish-speaking patient. Case report. Case Reports. 2019;5:68-80.
12. Xu XM, Rong B.B., Lv Z.Y., Yuan Z.J., Li Z.X. Foreign accent syndrome following herpes simplex encephalitis: A case report. Neurol Sci. 2020;41:2643-5.
13. Keulen S, Verhoeven J, de Witte E, de Page L, Bastiaanse R, Mariën P. Foreign accent syndrome as a psychogenic disorder: A review. Front Hum Neurosci. 2016;10:168.
14. Liu H, Qi P, Liu Y, Liu H, Li G. Foreign accent syndrome: Two case reports and literature review. Eur Rev Med Pharmacol Sci. 2015;19:81-5.
15. Checa-Moreno Á, Quevedo-Blasco R. Revisión sistemática en el Síndrome del Acento Extranjero: intervención y terapia del lenguaje. Revista Iberoamericana de Psicología y Salud. 2017;8:1-8.
16. Miller N, Taylor J, Howe C, Read J. Living with foreign accent syndrome: Insider perspectives. Aphasiology. 2011;25:1053-68.