

Caso clínico

Disfagia por anillos esofágicos en el síndrome de Sjögren

Carlos González Benítez, J. José Inchausti Irazábal, J. Ramón de Dios, J. de Aberásturi, Rubén Queiro Silva, Joaquín Belzunegui Otano y Manuel Figueroa Pedrosa

Servicio de Reumatología. Hospital Nuestra Señora de Aránzazu. San Sebastián.

Se presenta un caso de disfagia en una mujer con síndrome de Sjögren primario. Los exámenes complementarios demostraron la presencia de dos anillos que constreñían la luz esofágica. Mediante técnicas intervencionistas se consiguió superar dichas constricciones. La paciente permanece asintomática después de 3 años de seguimiento. Se comentan los posibles mecanismos patogénicos de la disfagia en el síndrome de Sjögren.

Palabras clave: Síndrome de Sjögren. Disfagia. Anillos esofágicos.

Dysphagia caused by oesophageal webs in a patient with primary Sjögren's syndrome

We present the unusual case of a woman with primary Sjögren's syndrome and dysphagia in whom two circumferential webs were identified by barium shadow and endoscopy. Endoscopic rupture was performed with excellent results; three years after the diagnosis she is free of symptoms. The pathogenic mechanisms causing dysphagia in patients with Sjögren's syndrome are also discussed.

Key words: Sjögren's syndrome. Dysphagia. Oesophageal webs.

Introducción

La disfagia es un síntoma frecuente en el síndrome de Sjögren (SS), tanto primario (SSP) como secundario, pudiendo presentarse hasta en un 75% de los pacientes¹. En su etiopatogenia se han implicado diversos mecanismos: falta de saliva¹, alteraciones funcionales motoras del esófago^{2-4,14,15}, presencia de anillos esofágicos (AE)^{1,5,6,16}, e incluso la existencia de una miositis de intensidad leve^{3,4} o una acalasia^{7,8}. Comunicamos un caso de SSP y presencia de AE.

Caso clínico

Mujer de 78 años, diagnosticada en 1978 de SSP por un síndrome seco (xerostomía y xeroftalmia), con biopsia de glándula salivar menor y pruebas de Schirmer y Rosa Bengalas positivas. En su estudio analítico destacaban una VSG de 71 mm/h, leve ane-

mia normocítica/normocrómica, hipergammaglobulinemia de 2,90 g/100 ml, factor reumatoide: 45 U/ml y anticuerpos antinucleares: 1/320 con positividad para anticuerpos anti-Ro/SSA y anti-La/SSB.

Desde entonces recibía tratamiento con colirios de metilcelulosa y colutorios sialogogos. En agosto de 1996 acudió a su revisión anual de rutina aquejando disfagia alta para sólidos y dolor abdominal difuso de varios meses de evolución. El examen físico reveló una boca muy seca, con lengua depapillada, siendo la exploración abdominal anodina. Una TC abdominal evidenció colelitiasis. En un enema opaco se observaron múltiples divertículos no complicados en colon. En un esofagograma con bario (3-9-1996) se apreció una membrana en el esófago cervical (fig. 1) y otra en el esófago distal, con una hernia hiatal deslizante y una estenosis en la unión esófago-gástrica (anillo de Schatzki) de 4 mm de diámetro (fig. 2). La esofagoscopia puso en evidencia un AE a 22 cm de la arcada dental, que se consiguió atravesar; a 30 cm existía un segundo AE cuyo paso no fue posible. Un nuevo esofagograma (27-10-1996) confirmó la persistencia de esta estenosis; se practicó una dilatación neumática con un globo de 12 mm, venciendo la muesca y obteniéndose un calibre posdilatación de 9 mm; no se observó la membrana esofágica cervical. Después de 3 años de seguimiento, la paciente permanece sin disfagia.

Correspondencia: Dr. C. González Benítez.
Servicio de Reumatología.
Hospital Nuestra Señora de Aránzazu.
P.º Dr. Beguiristáin, s/n. San Sebastián.

Manuscrito recibido el 10-5-2000 y aceptado el 22-1-2001.

Rev Esp Reumatol 2001; 28: 81-82



Figura 1. Esofagograma con bario que objetiva un anillo en la luz del esófago cervical (flecha).

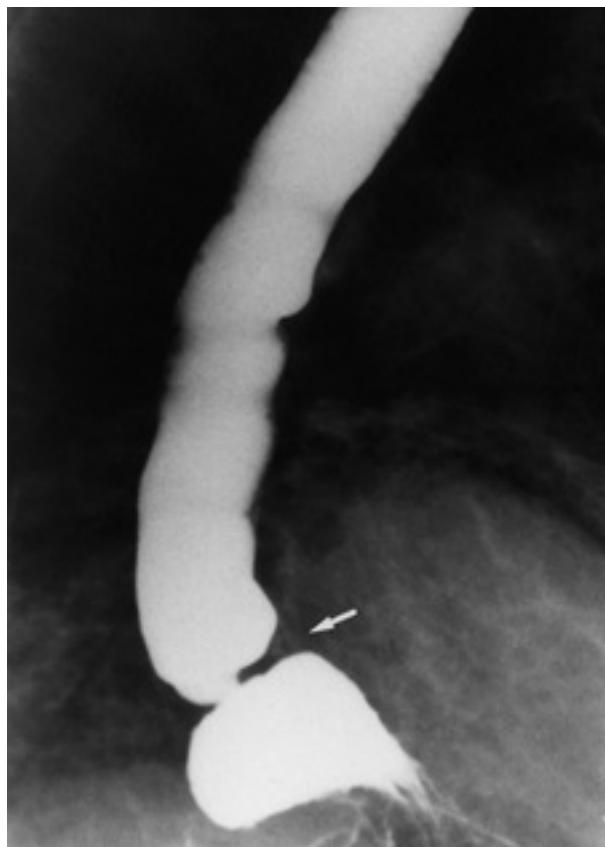


Figura 2. Esofagograma con bario en el que se observa un segundo anillo en la luz del esófago distal con una hernia hiatal deslizante (anillo de Schatzki) (flecha).

Discusión

Los AE son constricciones semilunares de la mucosa esofágica poscricoidea, idénticos en forma y localización a los que se desarrollan en la anemia ferropénica (síndrome de Plummer-Vinson). La mayoría se localizan exclusivamente en la pared anterior del esófago (60%), pero pueden ser también anterolaterales (30%) o abarcar toda la circunferencia esofágica. En unos pocos pacientes se han descrito AE dobles⁹.

La primera demostración radiológica de AE fue publicada por Mosher en 1927. Su incidencia en la población general es del 1%, mientras que en pacientes con disfagia alcanza un 15%^{9,10}; en este grupo, los AE constituyen el único hallazgo radiológico en el 35% de los casos, mientras que en el 65% restante se demuestran, mediante cinerradiología, anomalías funcionales concomitantes en la deglución.

La disfagia es uno de los síntomas más frecuentes en el SS, pudiendo presentarse hasta en un 75% de los pacientes^{1,11}, frente a un 16% de la población general¹. La mayoría de autores coinciden en señalar un origen multifactorial de esta disfagia^{12,13}.

La implicación de los AE en la disfagia del SS es discutida. Doig et al encuentran 4 casos de AE en-

tre 6 pacientes con SS y disfagia grave⁶, mientras que Kjellen et al los encuentran en 2 de 20 pacientes con SS y sin disfagia ni sideropenia¹. Para éstos y otros autores, una disfunción muscular primaria del esófago podría acompañarse del desarrollo de AE secundarios.

En el caso que presentamos, la resolución de los síntomas tras la desaparición de los AE, apoya la implicación de éstos en la etiopatogenia de la disfagia de esta paciente. Sin embargo, creemos que el hallazgo de AE en un paciente con SS es un hecho casual, puesto que no existen estudios que demuestren una mayor incidencia de AE en el SS respecto a pacientes con otro tipo de enfermedades, autoinmunes o de otra etiología.

Bibliografía

1. Kjellen G, Fransson SG, Lindström F, Söker H, Tibbling L. Esophageal function, radiography and dysphagia in Sjögren's syndrome. *Dig Dis Sci* 1986; 31: 225-9.
2. Ramírez-Mata M, Pena-Ancina FF, Alarcón-Segovia D. Abnormal esophageal motility in primary Sjögren's syndrome. *J Rheumatol* 1976; 3: 63-9.

3. Tsianos EB, Chiras CD, Drosos AA, Moutsopoulos HM. Oesophageal dysfunction in patients with primary Sjögren's syndrome. *An Rheum Dis* 1985; 44: 610-3.
4. Tsianos EB, Vasakos S, Drosos AA, Malamou-Mitsi VD, Moutsopoulos HM. The gastrointestinal involvement in primary Sjögren's syndrome. *Scand J Rheumatol* 1986; 61 (Supl): 151-5.
5. Hradsky M, Hybsek I, Cernoch V, Sazanova V, Juran J. Oesophageal abnormalities in Sjögren's syndrome. *Scand J Gastroenterol* 1967; 2: 200-3.
6. Doig JA, Whaley K, Dick WV, Nuki G, Williamson J, Buchana WW. Otolaryngological aspects of Sjögren's syndrome. *Br Med J* 1971; 4: 460-3.
7. Simila S, Kokkonen J, Kaski M. Achalasia sicca. Juvenile Sjögren's syndrome with achalasia and gastric hyposecretion. *Eur J Pediatr* 1978; 129: 175-81.
8. Weissmann G. Sjögren's syndrome. Review of the literature and report of a case with achalasia of the esophagus. *Am J Med* 1958; 24: 475-81.
9. Ekberg O. Cervical oesophageal webs in patients with dysphagia. *Clin Radiol* 1981; 32: 633-41.
10. Ekberg O, Nylander G. Cineradiography of the pharyngeal stage of deglutition in 150 individuals without dysphagia. *Br J Radiology* 1982; 55: 253-7.
11. Grande L, Lacima G, Ros E, Font J, Pera C. Esophageal motor function in primary Sjögren's syndrome. *Am J Gastroenterol* 1993; 88: 378-81.
12. Sheikl SH, Shaw-Stiffel TA. The gastrointestinal manifestations of Sjögren's syndrome. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 9-14.
13. Constantopoulos SH, Tsianos EV, Moutsopoulos HM. Pulmonary and gastrointestinal manifestations of Sjögren's syndrome. *Rheum Dis Clin North Am* 1992; 18: 617-35.
14. Palma R, Freire A, Freitas J, Morbey A, Costa T, Saraiva F et al. Esophageal motility disorders in patients with Sjögren's syndrome. *Dig Dis Sci* 1994; 39: 758-61.
15. Anselmino M, Zaninotto G, Constantini M, Ostuni P, Ianiello A, Boccù C et al. Esophageal motor function in primary Sjögren's syndrome. Correlation with dysphagia and xerostomia. *Dig Dis Sci* 1997; 42: 113-8.
16. Djemkova H, Pavelka K. An unusual clinical manifestation of secondary Sjögren's syndrome and concomitant Patérlson-Kelly syndrome. *Clinical Rheumatol* 1994; 13: 305-8.