

roides y reposo, pudiéndose recomendar la utilización de un collarín si los síntomas persisten. En los casos en los que se produzcan déficits neurológicos o síntomas por compresión de la médula ósea estaría indicado el tratamiento quirúrgico mediante laminectomía^{7,8}. La evolución natural es la curación espontánea. En el 70% de los casos la desaparición del dolor se produce durante el primer mes, produciéndose su desaparición entre los 28 días y los 6 meses posteriores a la aparición de los síntomas⁹. En los casos diagnosticados en nuestro hospital, se resolvió espontáneamente en todos los casos. El seguimiento de estos pacientes permite demostrar la resolución espontánea de las calcificaciones, lo que permite confirmar el diagnóstico y descartar otras enfermedades.

Bibliografía

1. Tomczak KK, Rosman NP. Torticollis. *J Child Neurol.* 2013;28:365–78.
2. Beluffi G, Fiori P, Sileo C. Intervertebral disc calcifications in children. *Radiol Med.* 2009;114:331–41.
3. Tsutsumi S, Yasumoto Y, Ito M. Idiopathic intervertebral disk calcification in childhood: A case report and review of literature. *Childs Nerv Syst.* 2011;27:1045–51.
4. Gerlach R, Zimmermann M, Kellermann S, Lietz R, Raabe A, Seifert V. Intervertebral disc calcification in childhood—a case report and review of the literature. *Acta Neurochir (Wien).* 2001;143:89–93.
5. Begatur AE, Zorer G, Centel T. The natural history of pediatric intervertebral disc calcification. *Arch Orthop Trauma Surg.* 2001;121:601–3.



Síndrome de Tapia tras intubación orotraqueal: a propósito de un caso

Tapia syndrome following orotracheal intubation: A case report

Sr. Editor:

El síndrome de Tapia se trata de una parálisis de la hemilengua y la cuerda vocal ipsolateral, con función preservada del paladar, secundaría a la afectación concurrente de los nervios hipogloso (xii) y vago (x).

Antonio García Tapia, otorrinolaringólogo español, describió este síndrome en 1904, consecuencia de una lesión cervical alta, secundaría a asta de toro («la enfermedad del matador»)¹. Sin embargo, este epónimo ha sido usado tanto para denominar el síndrome cruzado de origen bulbar dorsal (con afectación de núcleo del hipogloso, núcleo ambiguo y tracto piramidal)^{2,3}, como para la afectación periférica de los nervios vago e hipogloso a nivel cervical³.

Su forma periférica se ha podido observar tras manipulaciones de la vía aérea necesarias para la intubación orotraqueal.

Presentamos el caso de un paciente varón de 70 años, que tiene como antecedente más relevante una miocardiopatía

6. Cuevas Y, Schonhaut L, Espinoza A, Schonstedt V, Aird A, Castoldi F. Pediatric intervertebral disc calcification: A rare cause of acquired torticollis. Case report. *Rev Chil Pediatr.* 2015;86:200–5.
7. Chu J, Wang T, Pei S, Yin Z. Surgical treatment for idiopathic intervertebral disc in two cases. *Childs Nerv Syst.* 2010;26:973–8.
8. Bafard X, Renault F, Benharrats T, Mary P, Madi F, Vialle R. Intervertebral disc calcification with neurological symptoms in children: Report of conservative treatment in two cases. *Childs Nerv Syst.* 2010;26:973–8.
9. Jawish R, Rigault P, Padovani JP, Mouterde P, Touzet P, Chaumien JP. Intervertebral disk calcification in children. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot.* 1989;75:308–17.

A. Fernández Gómez^{a,*}, R. Bernal Calmarza^a,
L. Monge Galindo^{a,b}
y J. Luis Peña Segura^b

^a Unidad de Hospitalización, Servicio de Pediatría, Hospital Infantil Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España
^b Unidad de Neuropediatría, Servicio de Pediatría, Hospital Infantil Universitario Miguel Servet, Zaragoza, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: albafigo90@gmail.com
(A. Fernández Gómez).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2018.04.008>
0213-4853/

© 2018 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

dilatada de origen alcohólica, y que ingresó en un nuestro hospital por parada cardiorrespiratoria extrahospitalaria.

El paciente presentó como causa de la parada cardíaca, un ritmo de fibrilación ventricular que precisó una asistencia vital urgente total de 15 min entre reanimación cardiopulmonar básica y avanzada. El evento aconteció en la vía pública, donde se procedió a intubación orotraqueal de urgencia y se trasladó posteriormente a nuestro centro. A su llegada a urgencias, el paciente es admitido en la Unidad Coronaria de nuestro centro que, de forma inmediata, realizó una coronariografía urgente y protocolo de hipotermia a 33 °C. El paciente mantuvo sedación inducida farmacológicamente los primeros días desde su llegada a nuestro hospital, no existiendo una valoración neurológica inicial en este momento. De forma incidental, y secundario a una obstrucción del tubo de intubación, el paciente precisó un nuevo procedimiento completo de intubación orotraqueal a las 72 h del ingreso.

En la semana posterior al ingreso, dado que se sigue precisando de intubación mecánica para una adecuada ventilación, se tuvo que realizar traqueostomía programada para evitar lesiones en la vía aérea derivadas del tubo de intubación. En este momento de la evolución el paciente seguía precisando de sedación inducida y alimentación por vía parenteral. Transcurridos 10 días desde que ingresó en la Unidad Coronaria, el paciente comienza a recuperar el nivel de consciencia, con apertura ocular espontánea, y

presentando de forma preservada reflejos de tronco encéfalo, tanto reflejo pupilar, reflejos oculocefálicos como reflejo tusígeno. Se pudo retirar ventilación mecánica a las 2 semanas y se introdujo cánula de plata a través del orificio de traqueostomía.

A las 2 semanas del evento, y dentro del protocolo realizado por la Unidad Coronaria para valoración del daño cerebral en el paciente con parada cardiorrespiratoria recuperada, se realizó una resonancia magnética craneal (RM) que no mostraba lesiones isquémicas agudas ni crónicas aparentes, tanto a nivel supra como infratentorial, así como electroencefalograma y potenciales evocados somatosensoriales que no mostraron hallazgos relevantes o de interés para el caso.

Durante las 2 semanas siguientes de hospitalización en Unidad Coronaria, el paciente evoluciona de forma satisfactoria, preservando adecuado nivel de consciencia en todo momento y recuperando progresivamente la movilidad y la fuerza de las extremidades, así como la capacidad de deglución y de fonación, no evidenciándose en un primer momento en las exploraciones realizadas ni disfagia ni disfonía. La evolución se considera excelente y, al finalizar el primer mes desde el evento inicial, el paciente es trasladado a la planta de hospitalización del servicio de Cardiología. En la valoración inicial realizada en este servicio se incluyó una exploración neurológica básica, que puso de manifiesto una parálisis para la movilidad lingual y dificultad para la fonación, consistente en hipofonía, sin otros hallazgos que orientasen a focalidad neurológica deficitaria y con un nivel de consciencia normal.

Debido a estos hallazgos, fue valorado por el servicio de Neurología de nuestro centro, que objetivó, tras una completa y meticulosa exploración neurológica, disfonía e hipofonía, así como parálisis de la hemilengua izquierda, sin objetivarse atrofia de la misma ni otros hallazgos en la exploración indicativos de afectación de núcleos de tronco encéfalo ni hallazgos clínicos indicativos de afectación de la vía piramidal o vías sensitivas largas.

Se contactó con el servicio de Otorrinolaringología, que completó el estudio de los hallazgos previamente descritos en la exploración neurológica, y que realizó una evaluación mediante prueba de fibroscopia/laringoscopia, que puso de manifiesto una parálisis en aducción de la cuerda vocal izquierda. Además, se realizó un nuevo estudio mediante RM que descartó causas centrales, así como lesiones ocupantes de espacio de la base del cráneo.

El paciente fue diagnosticado de síndrome de Tapia periférico secundario a una complicación traumática tras intubación orotraqueal repetida, y se decidió tratamiento conservador con rehabilitación fonológica y deglutoria, presentando mejoría clínica progresiva, y encontrándose completamente resuelto el cuadro a los 4 meses desde su inicio.

El caso es ilustrativo de un síndrome de Tapia de probable causa periférica, por sospecha de neuropatía traumática de los nervios X y XII, que en el caso de nuestro paciente probablemente se debiera a una intubación orotraqueal repetida.

Es importante conocer la anatomía de los principales síndromes de troncoencéfalo, así como aquellos otros síndromes que tienen su origen a la salida de los nervios craneales, tanto a nivel de la base del cráneo como en su

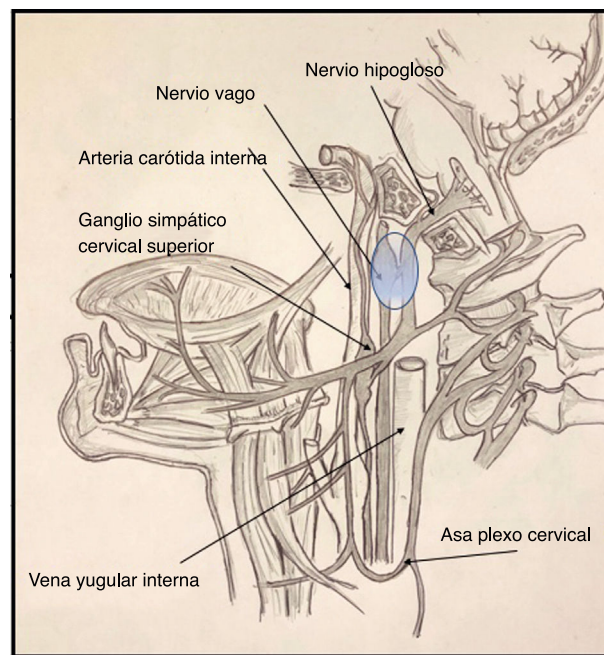


Figura 1 Relaciones esquemáticas del nervio hipogloso y nervio vago en el espacio retroestileo.

trayecto en las porciones cervicales superiores. En el caso del síndrome de Tapia, es importante conocer que la salida de ambos pares craneales (X y XII) ocurre en el bulbo raquídeo hacia la base del cráneo, donde alcanzan sendos orificios de salida hacia el espacio laterofaríngeo o retroestileo.

Por orden de salida, el nervio X abandona la base del cráneo hacia el espacio retroestileo, a través de la porción anterior del agujero yugular acompañando tanto a los nervios glossofaríngeo (nervio IX) y accesorio (nervio XI), como a la vena yugular interna. Inmediatamente en el espacio retroestileo, el nervio X formará parte de un paquete vasculonervioso, situándose en el canal posterior formado por la arteria carótida interna y la vena yugular interna. A esta altura la formación más importante del nervio es el ganglio inferior o nudoso, en cuyo vértice inferior se encuentra el origen del nervio laríngeo superior.

Por otra parte, el nervio XII, tras un corto trayecto en el espacio subaracnoideo, abandonará la base del cráneo (a través del canal del hipogloso), también hacia el espacio retroestileo. Una vez en este espacio, el trayecto del nervio es inicialmente descendente y posterior a la arteria carótida interna. El nervio alcanza por orden 2 estructuras de interés anatómico, que son primeramente la porción superior del ganglio cervical superior de la cadena simpática y seguidamente la porción posterior del ganglio nudoso, previamente descrito, al cual se adhiere (fig. 1). Posteriormente, el nervio cambiará de dirección, describiendo un trayecto más anterior y adentrándose en su porción final o porción suprahiodea⁴.

Diversos mecanismos de traumatismo nervioso se han propuesto para la afectación conjunta de los nervios X y XII durante la intubación orotraqueal. El primer mecanismo propuesto parece tener relación al cruce del nervio hipogloso y el vago a nivel del ganglio nudoso (fig. 1). Es en este lugar donde la proximidad de estas estructuras a la apófisis trans-

versa de la primera vértebra cervical (C1) puede originar un mecanismo traumático directo por distensión cervical. La postura mantenida de hiperextensión cervical necesaria para la correcta intubación podría justificar un trauma directo de ambas estructuras nerviosas contra los elementos óseos cervicales previamente descritos^{5,6}.

El otro mecanismo propuesto consiste en la lesión conjunta, por traumatismo directo y simultáneo, del nervio hipogloso en su porción suprahiodea y el nervio laríngeo recurrente a nivel de la hipofaringe (fosa piriforme). En este mecanismo propuesto, el propio paso del tubo de intubación a través de la orofaringe provocaría una compresión del nervio hipogloso contra el cuerno mayor del hueso hioides, y posteriormente el hinchado del balón de seguridad del tubo endotraqueal provocaría la aplicación del nervio laríngeo recurrente contra el borde posteromedial del cartílago tiroideos, generando de esta manera un mecanismo de trauma directo⁷.

El tratamiento del síndrome de Tapia secundario a intubación orotraqueal es fundamentalmente de soporte, con rehabilitación fonológica y de la deglución, siendo aceptado el uso de corticoterapia por vía intravenosa (dexametasona) en los primeros 10-14 días. Incluso se ha propuesto una clasificación basándose en el grado de discapacidad secundario para la deglución⁸.

Tanto la mejoría del paciente tras tratamiento conservador, como la resolución completa del cuadro, indican un probable origen neuroapráxico como mecanismo de lesión axonal, siendo menos probable un cuadro de neurotmesis, lo que implicaría una probable lesión irreversible de ambos nervios. Es además este mecanismo de neuroapraxia, el postulado en la mayor parte de los casos de síndrome de Tapia secundarios a intubación orotraqueal descritos⁹.

Bibliografía

1. Tapia AG. Un caso de parálisis del lado derecho de la laringe y de ungue, con parálisis del externo-cleidomastoidea y trapecio del mismo lado. *Siglo Medica*. 1905;52:211–3.
2. Bogouslavsky J, Fox AJ, Barnett HJ, Hachinski VC, Vintski S, Carey LSAT. Clinico-topographic correlation of small verte-brobasilar infarct using magnetic resonance imaging. *Stroke*. 1986;17:929–38.
3. Schoenberg BS, Massey EW. Tapia's síndrome. The erratic evolution of an eponym. *Arch Neurol*. 1979;36:257–60.
4. Rouvière H, Delmas A. Anatomía humana: descriptiva topográfica y funcional. Tomo 1. Cabeza y Cuello. 11.ª ed. Barcelona: Masson; 2005.
5. Lykoudis EG, Seretis K. Tapia's syndrome: An unexpected but real complication of rhinoplasty: Case report and literature review. *Aesth Plast Surg*. 2012;36:557–9.
6. Nalladaru Z, Wessels A, DuPreez L. Tapia's syndrome —a rare complication following cardiac surgery. *Interact CardioVasc Thorac Surg*. 2012;14:131–2.
7. Tesei F, Poveda LM, Strali W, Tosi L, Farneti G. Unilateral laryngeal and hypoglossal paralysis (Tapia's syndrome) following rhinoplasty in general anaesthesia: Case report and review of literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2006;26:219–21.
8. Boga I, Aktas S. Treatment, classification and review of Tapia syndrome. *J Craniofac Surg*. 2010;21:278–80.
9. Coninckx M, Cardoen S, Hemelsoet D. Tapia's syndrome in the intensive care unit: A rare cause of combined cranial nerve palsy following intubation. *Acta Neurol Belg*. 2015;115:533–7.

L. Silva-Hernández*, C. Gil Rojo, N. González García y J. Porta-Etessam

Servicio de Neurología, Hospital Clínico San Carlos, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: l.silva@ucm.es (L. Silva-Hernández).

<https://doi.org/10.1016/j.nrl.2018.05.007>
0213-4853/

© 2018 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Distonía mioclónica y ataxia cerebelosa en la autoinmunidad antiglutámico-descarboxilasa



Myoclonus-dystonia and cerebellar ataxia in association with anti-glutamic acid decarboxylase autoimmunity

Sr. Editor:

El ácido γ -aminobutírico (GABA) es el principal neurotransmisor inhibitorio en el sistema nervioso central. La autoinmunidad contra el enzima glutámico-decarboxilasa (GAD), clave en la síntesis de GABA a partir de ácido glutámico, inhibe selectivamente la neurotransmisión GABAérgica, causando cuadros neurológicos como síndrome de la persona rígida, encefalitis progresiva con rigidez y mio-clonias, epilepsia y ataxia cerebelosa, y puede asociarse a

neoplasias, síndromes poliglandulares autoinmunes, diabetes mellitus tipo 1 y tiroiditis autoinmune^{1–3}. Se presenta un caso de distonía mioclónica con ataxia cerebelosa, asociado a autoinmunidad anti-GAD. El estudio fue aprobado por el Comité Local de Ética, con el consentimiento informado del paciente.

Varón de 41 años, que hace 14 años presentó de forma aguda contractura en extensión de la extremidad superior derecha que duró varias semanas, y dejó como secuela movimientos involuntarios en la mano y postura en flexión de la muñeca, que se propagaron posteriormente a la extremidad superior izquierda. Se mantuvo estacionario hasta hace 2 años, cuando se produjo un empeoramiento progresivo a pesar de recibir tratamiento con baclofeno, tizanidina y oxcarbazepina, quedando incapacitado para escribir o manejar herramientas.

A la exploración, las extremidades superiores exhibían una postura en aducción de brazos, extensión de codos y flexión forzada de muñecas, con sacudidas musculares súbi-